



*Journal of*

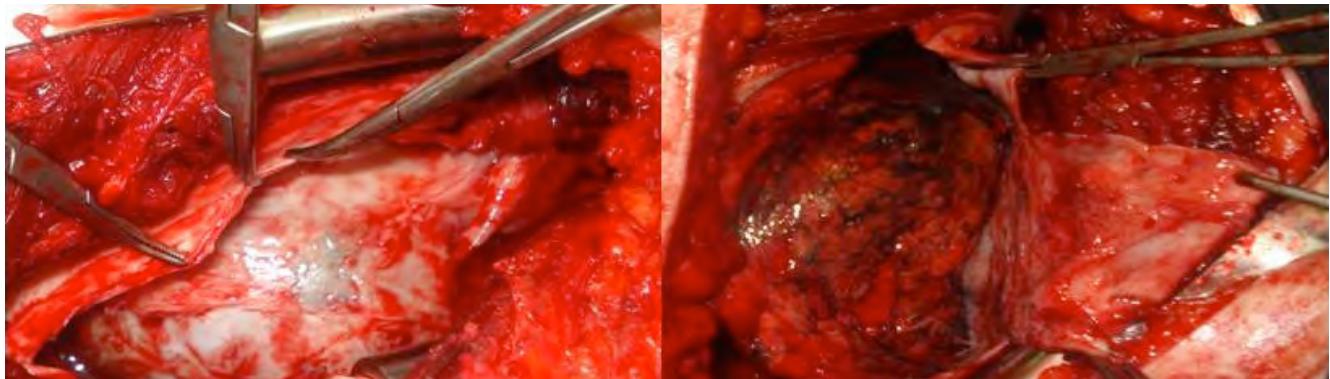
# *Clinical and Analytical Medicine*

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi

Vol: 4 Supplement 4 August 2013

## Should Surgery be Necessary in Late Period of Chronic Fibrinous Pleuritis?

Döngel İ, Yazkan R, Yılmaz Ö



### Contents;

- *Should Surgery be Necessary in Late Period of Chronic Fibrinous Pleuritis?*
- *Intravenous Immunoglobulin Treatment in the Management of Myasthenic Crisis: Case Report*
- *Intrauterine Contraceptive Device Migrated into the Urinary Bladder and a Review of the Literature*
- *Prophylactic Mastectomy: Case Report*
- *HPV Negative Seborrheic Keratosis of Genital Area*
- *Syringocystadenoma Papilliferum in an Unusual Location on Vulva: A Case Report*
- *Asymptomatic Left Atrial Myxoma in Elderly Patient: A Case Report*
- *Reduction of Hip Dislocation with Fascia Iliaca Compartment Block*
- *Tooth Extraction with Sedation in a Child with Duchenne Muscular Dystrophy*
- *Idiopathic Eruptive Macular Pigmentation: Pediatric Case Report*
- *Co-occurrence of Acute Coronary Syndrome and Stroke: Trousseau's Syndrome*
- *Postpartum Inflammatory Sacroiliitis-A Case Report*



Journal of

# Clinical and Analytical Medicine

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi

Vol: 4 Supplement 4 August 2013

## DERGİ

Journal of Clinical and Analytical Medicine  
(Kısa Başlık: J Clin Anal Med)

Kartaltepe Mahallesi, Atatürk Bulvarı, Belediye İşhanı, No: 9/9, Bala, Ankara, Türkiye.  
GSM: +905303042583 • F: +90 3128761089 • [www.jcam.com.tr](http://www.jcam.com.tr) • [info@jcam.com.tr](mailto:info@jcam.com.tr)

### Yayıncı

Derman Tibbi Yayıncılık

Kartaltepe Mh. Atatürk Cd. No: 9/9,  
Bala, Ankara, Türkiye.  
T: +90 3128761089  
E-posta: [info@jcam.com.tr](mailto:info@jcam.com.tr)

### Editör

Orhan Yücel

GATA Göğüs Cerrahisi. AD.  
06118, Etilk, Ankara.  
T: +905303042583  
E-posta: [editor@jcam.com.tr](mailto:editor@jcam.com.tr)

### Sekreter

Ülker Bora, Jim Morgan

Kartaltepe Mh. Atatürk Cad.  
No: 9/9, Bala, Ankara.  
T: +90 3123045188  
E-posta: [secretary@jcam.com.tr](mailto:secretary@jcam.com.tr)

Klinik ve Analitik Tıp Dergisi, tıbbın her dalı ile ilgili retrospektif, prospектив veya deneySEL çalışmalar, ilginç olgu bildirimlerini, davet üzerine yazılan derlemeleri, editöre mektupları, orijinal görsüntüleri, kongre, kurs, seminer, haber ve duyuruları, ilginç araştırmaların özetlerini ve güncel tıp gündemindeki konuları yayar. Yayıncılar, reklamı verilen ticari ürünlerin açıklamaları konusunda hiçbir garanti vermemekte ve konuya ilgili sorumluluk kabul etmemektedir. Dergi yılda 6 sayı olarak Ocak, Mart, Mayıs, Temmuz, Eylül ve Kasım aylarında yayanmaktadır. Yazıların bilimsel sorumluluğu yazarlara aittir.

Journal of Clinical and Analytical Medicine publishes every branch of medicine concerned with the retrospective, prospective or experimental studies, interesting case reports, invited reviews, letters to the editor, original images, congress, course, seminar, news item and declaration, brief reports on original studies, and current medical issues in the agenda. Publishers do not give any guarantees about description of the commercial product and do not accept responsibility for the subject. The journal is published six times in a year and in January, March, May, July, September and November. The author(s) undertake(s) all scientific responsibility for the manuscript.

### JCAM İndekslentiği Dizinler / Indexes

Embase; Index DOAJ, EMBASE, SCOPUS, Index Copernicus, Pleksus Medline, TÜBİTAK ULAKBİM, Türkiye Atıf Dizini

Matbaa/Yayinevi/Satış/Dağıtım: Derman Tibbi Yayıncılık, Kartaltepe Mah, Atatürk Cad, No: 9/9, Bala, Ankara, Türkiye. T: +90 3128761089 • F: +90 3128761089 • E-Mail: [info@jcam.com.tr](mailto:info@jcam.com.tr) • Basım Tarihi/Press Data: 01.11.2013



## Editor / Editor

Orhan Yücel, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

## Bölüm Editörleri / Section Editors

Ali Sızlan, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Fatih Zor, Plastic Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Hakan Şimşek, Neurosurgery, Kasımpaşa Military Hospital, İstanbul, Turkey, Mustafa Burak Hoşcan, Urology, Başkent University Faculty of Medicine, Antalya, Turkey

## Yardımcı Editörler / Associate Editors

Akın Yıldızhan, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, Burçin Çelik, Thoracic Surgery, 19 Mayıs University Medical School, Samsun, Turkey, Didem Sonbay, Otolaryngology, Antalya Selale Private Medical Center, Antalya, Turkey, Mürvüvet Seda Balaban, Hacettepe University Faculty of Medicine, Department of Internal Medicine, Ankara, Turkey, Oğuzhan Okutan, Pulmonary Medicine, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, Ömer Gökhan Doluoğlu, Urology, Ankara Numune Education and Research Hospital, Ankara, Turkey, Sezai Çubuk, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

## Uluslararası Danışma Kurulu / International Editorial Board

Abramson Horacio, Thoracic Surgery, Universidad de Buenos Aires Buenos Aires, Argentina, Carla Lamb, Pulmonology, Critical Care Medicine, Lahey Clinic, Burlington, USA, Frank-Martin Haecker, Pediatric Surgery, University Children's Hospital, Basel, Hans K. Pilegaard, Cardiothoracic Surgery, Aarhus University Hospital, Denmark, Hayati Bilgiç, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Hyung Joo Park, Thoracic and Cardiovascular Surgery, Korea University Medical Center, Korea, Onur Genç, Turkish Religious Foundation 29 Mayıs Private Hospital, Ankara, Turkey, Peter Goldstraw, Thoracic Surgery, National Heart and Lung Institute, Imperial College, London, UK, Richard W. Light, Pulmonary Disease, and Critical Care Med., Vanderbilt University, Tennessee, USA, Semra Bilaçeroğlu, Pulmonary Medicine, Izmir Training and Research Hospital for Thoracic Medicine and Surgery, Turkey, Shahinur Rahman, Thoracic Surgery, Combined Military Hospital, Dhaka, Bangladesh, Yoshiya Toyoda, Cardiothoracic Surgery, University of Pittsburgh Physicians, Pittsburgh, USA, Yusuf Peker, General Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey

## Danışma Kurul / Editorial Board

Ali Kılıçgün, Thoracic Surgery, Abant İzzet Baysal University Faculty of Medicine, Bolu, Turkey, Alper Gözübüyük, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Ayşe Eken, Pharmaceutical Toxicology, Erciyes University, Pharmacy Faculty, Kayseri, Turkey, Basar Sareyyupoglu, Cardiothoracic Surgery, TAMHSC College of Medicine, Texas, USA, Bülent Karaman, Radiology, Gulhane Military Medical School, Ankara, Turkey, Cantürk Tasçı, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Celalettin Sever, Plastic Surgery, Gulhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, Ergün Tozkoparan, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Ergün Uçar, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Erkan Vuralkan, Otolaryngology, Yıldırım Beyazıt Training and Research Hospital, Ankara, Turkey, Hasan Çaylak, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, İbrahim Yetim, General Surgery, Mustafa Kemal University, Faculty of Medicine, Hatay, Turkey, Makbule Ergin, Thoracic Surgery, Gazişmanpasa University School of Medicine, Tokat, Turkey, Mehmet Dakak, Thoracic Surgery, TOBB ETÜ Hospital, Ankara, Turkey, Mehmet Gamsızkan, Pathology, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Mehmet Zeki Günlüoğlu, Thoracic Surgery, İstanbul Medipol University, Medical Faculty, İstanbul, Turkey, Muharrem Erol, Thoracic Surgery, Bursa University Faculty of Medicine, Bursa, Turkey, Mustafa Tansel Kendirli, Neurology, Gülhane Military Medical Academy, İstanbul, Turkey, Murat Tavlaşoğlu, Cardiovascular Surgery, Diyarbakır Military Medical Hospital, Diyarbakır, Turkey, Murat Ünlü, Cardiology, Beytepe Military Hospital, Ankara, Turkey, Nazif Zeybek, General Surgery, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Ömer Deniz, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Pınar Bıçakçıoğlu, Thoracic Surgery, Ataturk TRH for Chest Disease and Chest Surgery, Ankara, Turkey, Sait Demirkol, Cardiology, School of Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Sedat Gürkök, Thoracic Surgery, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Selahattin Bedir, Urology, Gülhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Seyfettin Gümüş, Pulmonary Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Ülkü Yazıcı, Thoracic Surgery, Ataturk Chest Diseases and Chest Surgery ERH, Ankara, Turkey, Yusuf Sinan Şirin, Surgery, Faculty of Veterinary Medicine, Ankara University, Ankara, Turkey, Zekeriya Arslan, Cardiology, School of Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey, Zeki İlker Kunak, Medical CBRN Defense, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey



## İçindekiler (Table of Contents)

### Olgu Sunumu / Case Report

<b>Geç Dönem Kronik Fibrinöz Plöritte Cerrahi Yapılmalı mı?</b> 343-345	Should Surgery be Necessary in Late Period of Chronic Fibrinous Pleuritis? İsa Dönge, Rasih Yazkan, Ömer Yılmaz
<b>Çamaşır Suyu Enjeksiyonu ile İntihar Girişimi: Olgu Sunumu</b> 346-348	Hipochlorid Suicide Attempts with Sodium Hipochlorid Injection: Case Report Cemil Kavalci, Eylem Sezenler
<b>Persistan Sol Süperior Vena Kava veSubaortik Diskret Membran Birlikteliği</b> 349-351	A Combination of Persistent Left Superior Vena Cava and Subaortic Discrete Membrane Sait Demirkol, Şevket Baltा, Murat Ünlü, Zekeriya Arslan, Mustafa Kürkluoğlu
<b>Myastenik Kriz Yönetimiinde İtravenöz İmmunoglobulin Tedavisi: Olgu Sunumu</b> 352-354	Intravenous Immunoglobulin Treatment in the Management of Myasthenic Crisis: Case Report Ebru Salman, Fahri Yetişir, Banu Yürekli, Alper Bozkurt, Mehmet Kılıç
<b>Nadir Bir Karaciğer Tümörü; Hepatik Epiteloid Hemanjioendotelyoma</b> 355-357	A Rare Hepatic Tumor; Hepatic Epithelioid Hemangioendothelioma Elif Ülker Akyıldız, Sadıman Balaban Adım, Özlem Saraydaroglu, Ekrem Kaya, Gürsel Savcu
<b>Protein C Eksikliği ile Birelikte olan Klinefelter Sendromunda Pulmoner Tromboemboli Olgusu</b> 358-360	Pulmonary Thromboembolism in Klinefelter's Syndrome Patient with Deficient of Protein C Mehmet Yigit, Kenan Ahmet Turkdogan, Muhammed Emin Akkoyunlu, Hazar Lisar, Zeynep Erturk
<b>Mesaneye Göç Etmiş İtrauterin Araç ve Literatürün Değerlendirilmesi</b> 361-363	Intrauterine Contraceptive Device Migrated into the Urinary Bladder and a Review of the Literature Orhan Ünal Zorba, Hakkı Uzun
<b>Langerhans Hücreli Histiyoositozisde Persistan Hava Kaçağı Tedavisinde "Blood Patch" Plörodezis; Bir Olgu Sunumu</b> 364-367	Blood Patch Pleurodesis in the Treatment of Persistant Air Leakage in Langerhans Cell Histiocytosis; A Case Report Ayşe Baççıoğlu, Nesimi Günal, Füsun Kalpakoğlu, Koray Dural, Berkant Özpolat
<b>Ankilozan Spondilitli Hastada Stabilizasyon Cerrahisi Sonrası Gelişen Hidrosiringomyeli</b> 368-371	Hydrosyringomyelia in an Ankylosing Spondylitis Patient After Stabilization Surgery Deniz Öke Topcu, Sevgi İkbalı Afsar, Adem Topcu
<b>Parotis Adenoid Kistik Karsinomlu Olguda Multipl Akciğer Metastazı ve Solunum Yetmezliği</b> 372-374	Multiple Lung Metastases From Parotid Adenoid Cystic Carcinoma with Respiratory Failure Hülya Günbatar, Selami Ekin, Binyamin Sertogullarından, Alpaslan Yavuz, Gülay Bulut
<b>Nadir Bir Olgu Sunumu: İtraskrotal Non-Testiküler "Ancient" Schwannoma</b> 375-377	Intrascrotal Non-Testicular "Ancient" Schwannoma: A Rare Case Report Fatma Uysal, Murat Tolga Gülpınar, Gürhan Adam, Mustafa Resorlu, Nilüfer Aylanç
<b>Profilaktik Mastektomi: Olgu Sunumu</b> 378-380	Prophylactic Mastectomy: Case Report Oktay Karakoş, Hüseyin Pülat, Hasan Erol Eroğlu
<b>Sezaryenla Doğum Esnasında Gelişen Sağ Femur Fraktürü: Nadir Bir Komplikasyon</b> 381-382	Cesarean Section and Femur Fracture: A Rare Complication Eyüp Çağatay Zengin, Volkan Güneyli, Turan Taş
<b>Genital Bölgede HPV Negatif Seboreik Keratоз</b> 383-385	HPV Negative Seborrheic Keratosis of Genital Area Korkut Bozkurt, Şenay Ağırçıl, Hayati Beka
<b>Akciğerin Nadir Görülen Küçük Hücreli Dışı Tümörü; Lenfoepitelyoma Benzeri Karsinom</b> 386-388	A Rare Non-Small Cell Lung Tumor; Lymphoepithelioma Like Carcinoma Mustafa Kuzucuoğlu, Yekta Altemur Karamustafaoğlu, Fazlı Yanık, Yener Yörük
<b>Karbamazepine Bağlı Erektil Disfonksiyon Gelişen İki Olgunun Antiepileptik İlaç Değişimi ile Tedavisi</b> 389-391	The Antiepileptic Drug Change Treatment of Two Cases with Carbamazepine-Induced Erectile Dysfunction Mehmet Reşit Gören, Cevahir Özer, Zülfikar Arıler
<b>Vulvada Yerleşmiş Siringokistadenoma Papilliferum: Olgu Sunumu</b> 392-393	Syringocystadenoma Papilliferum in an Unusal Location on Vulva: A Case Report Muzyeyen Duran, Emin Ustunyurt, Alper Turgut, Narter Yeşildağlar
<b>Sefuroksim Aksetil Kullanımına Bağlı Gelişen Anafilaktik Şok</b> 394-395	Anaphylactic Shock Developing in Association with Cefuroxime Axetil Use Aynur Sahin, Melih İmamoğlu, Aslı Özcan, Yunus Karaca, Abdulkadir Gunduz
<b>Çocukluk Çağında Obsesif Kompulsif Bozuklukta Aripiprazol Güçlendirme Tedavisi: Üç Olgu Sunumu</b> 396-398	Aripiprazole Augmentation in Childhood Obsessive-Compulsive Disorder: Three Case Reports Murat Yüce, Koray Karabekiroğlu, Gökçe Nur Say, Filiz Uçar
<b>İkizden İkize Transfüzyonun Sıradışı Bir Komplikasyonu Alt Ekstremitelerin İtrauterin Gangreni</b> 399-400	An Unusual Complication of Twin to Twin Transfusion Intrauterine Gangrene of the Lower Extremities Mehmet Fatih Korkmaz, Ramazan Ozdemir, Muharrem Ak, Ahmet Karadag
<b>Yaşılı Hastada Asemptomatik Sol Atrial Miksoma: Olgu Sunumu</b> 401-403	Asymptomatic Left Atrial Myxoma in Elderly Patient: A Case Report Seyhan Yılmaz, Serdar Günaydin
<b>İhmal Edilmiş Konjenital Patella Çıkığında Total Diz Protezi</b> 404-407	Total Knee Arthroplasty in a Patient with Neglected Congenital Patellar Dislocation Emrah Kovalak, Alican Barış, Enes Kanay, Abdullah Obut, Tolga Tüzüner
<b>Malpoze Port Kateterinin Perkütan Transfemoral Yolla Repozisyonu</b> 408-410	Percutaneous Transfemoral Repositioning of Malpositioned Port Catheter Erdem Birgi, Onur Ergun, İdil Güneş Tatar, Baki Hekimoğlu

411-413	<b>Fascia İliaca Kompartman Bloğu ile Kalça Çıkık Redüksiyonu</b> Reduction of Hip Dislocation with Fascia Iliaca Compartment Block Ümit Kaldırım, Salim Kemal Tuncer, Serkan Bilgiç, Memduh Yetim, Yusuf Emrah Eyi
414-416	<b>Primer Renal Karsinoid Tümör: Olgu Sunumu</b> Primary Renal Carcinoid Tumor: A Case Report Mehmet Karabakan, Serkan Akdemir, Alp Özgür Akdemir, Sezer Kulaçoğlu, Mesut Çetinkaya
417-419	<b>Dirençli Astım Tanılı Hastaya Nihai Tanı: Distal Sol Ark Atrezisi İnkomplet Çift Aortik Ark</b> Final Diagnosis of Resisting Asthma:Incomplete Double Aortic Arch with Distal Left Arch Atresia Emrah Seker, Mehmet H. Atalar, Selma Yucel, Kenan Varol, Ferhat Sezer
420-422	<b>Duchene Müsküler Distrofili Bir Çocukta Sedasyonla Diş Çekimi</b> Tooth Extraction with Sedation in a Child with Duchenne Muscular Dystrophy Dilek Günay Canpolat, Mustafa Denizhan Yıldırım, Mustafa Aydinbelge, Kenan Çantekin
423-425	<b>Tek Taraflı Peripapiller Miyelinli Retina Sinir Liflerinde Optik Koherens Tomografi Bulguları</b> Optical Coherence Tomography Findings in Unilateral Peripapillary Myelinated Retinal Nerve Fibers Alime Gunes, Seden Demirci, Mustafa Gunes
426-428	<b>Bell Palsi ve Akupunktur Tedavisi</b> Bell Palsy and Acupuncture Treatment Bektaş Battaloğlu İnanç
429-431	<b>Retinitis Pigmentozaya İkincil Makula Ödemli Olguda Mikroperimetri Bulguları</b> Microperimetry Findings of a Patient with Macular Edema Secondary to Retinitis Pigmentosa Cem Özgönül, Tarkan Mumcuoğlu, Gökçen Gökcé
432-434	<b>İdyopatik Erüptif Maküler Pigmentasyon: Pediyatrik Olgu Sunumu</b> Idiopathic Eruptive Macular Pigmentation: Pediatric Case Report Seval Doğruk Kaçar, Pınar Özgüz, Çiğdem Özdemir, Merve Demir
435-436	<b>Akalazya, Paraözofageal Divertikül ve Dekstrokarde Birlikte</b> Togetherness of Achalasia, Paraesophageal Diverticulum and Dextrocardia Hakan Demirci, Cenk Kılıç, Kadir Öztürk, Murat Kantarcıoğlu, Ahmet Uygun
437-439	<b>Kastrasyon Resistans Metastatik Prostat Kanserinde Dosetaksel Sonrası Estramustin Kullanımı</b> Estramustine Usage After Docetaxel in Castration Resistance in Prostate Cancer Mustafa Yıldırım, Çetin Kaya, Sevil GöktAŞ, Utku Dönem Dilli, Mustafa Yıldız
440-442	<b>Asendan - Desendan Aortik Bypass Yapılan Komplike Aort Koarktasyonu Olgusu</b> Case of a Ascending-to-Descending Aortic Bypass for Complex Coarctation of the Aorta Bektaş Battaloğlu, Olcay M. Dişli, Barış Akça, Cemşit Karakurt, Nevzat Erdil
443-445	<b>Akut Koroner Sendrom ve Strok Birlikte</b> ; Troussseau Sendromu Co-occurrence of Acute Coronary Syndrome and Stroke: Troussseau's Syndrome Mehmet Yigit, Kenan Ahmet Turkdogan, Ozgur Sogut, Eda Yigit, Aslı Yaman
446-448	<b>Yetişkin Bir Hastada Pulmoner Arterden Orjin Alan Sol Ana Coronar Arter Çıkış Anomalisi</b> Anomalous Origin of the Left Coronary Artery from the Pulmonary Artery (ALCAPA) in an Adult Yunus Nazlı, Omer Nuri Aksoy, Kemal Korkmaz, Ismail Olgun Akkaya, Necmettin Colak
449-451	<b>İnterstitial Akciğer Hastalığı Görünümünde Akciğer Adenokarsinomu Olgusu</b> A Case of Lung Adenocarcinoma Mimicking Interstitial Lung Disease Tevfik İlker Akçam, Ayşe GüL Ergönül, Ufuk Çağırıcı, Alpaslan Çakan, Ali Veral
452-454	<b>Kauda Ekuina Sendromuna Neden Olan Postoperatif Spinal Epidural Hematom: Olgu Sunumu</b> Postoperative Spinal Epidural Haematoma Causing Cauda Equina Syndrome: Case Report Emre Delen, Barış Birgili, Ahmet Tolgay Akinci, Selçuk Yavuz
455-457	<b>Postpartum İnflamatuar Sakroilit-Ölgü Sunumu</b> Postpartum Inflammatory Sacroilitis-A Case Report Şeniz Akçay Yalbuzdag, AsİYE Mukaddes Erol, İlker Şengül, Canan Çelik
458-460	<b>Parsiyel Çift Lümenli Distal Üreterin Radyolojik Bulguları: Literatürdeki İlk Olgu</b> Radiologic Findings of Distal Ureter with Partially Double Lumen: First Case in the Literature Elif Karadeli, Şerife Nur Ulusan, Özgür Yayıcioğlu



## Should Surgery be Necessary in Late Period of Chronic Fibrinous Pleuritis?

### Geç Dönem Kronik Fibrinöz Plöritte Cerrahi Yapılmalı mı?

Kronik Fibrinöz Plörit / Chronic Fibrinous Pleuritis

İsa Döngel<sup>1</sup>, Rasih Yazkan<sup>1</sup>, Ömer Yılmaz<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Göğüs Cerrahisi Ana Bilim Dalı, <sup>2</sup>Radyoloji Ana Bilim Dalı, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Isparta, Türkiye

#### Özet

Plevral efüzyonu olan olgularda belirti ve bulgular plevral efüzyona neden olan etiyojiye ve sıvının miktarına bağlıdır. Semptomlar plevranın inflamasyonu, pulmoner mekaniklerin bozulması, tuzak akciğer oluşumu, gaz değişiminde bozulma veya azalmış kardiyak output'a bağlı olabilir. Burada tuzak akciğer oluşmuş bir olguda dekortikasyon, plevrektomi ameliyatı sonrası akciğerin yeniden ekspansiyonunun sağlandığı, kan gazi ve solunum fonksiyon testlerinde düzelleme olduğu görüldü. Biz bu olgu sunumu ile tuzak akciğerli hastalarda cerrahinin geç dönemde bile gel-seler öncelikli tedavi seçenekleri arasında olması gerektiğini sunmayı amaçladık.

#### Anahtar Kelimeler

Plevral Efüzyon; Fibrinöz Plörit; Cerrahi

#### Abstract

The signs and symptoms in patients with pleural effusion depend on the amount of fluid and the etiology. The symptoms may be due to the pleural inflammation, deterioration of pulmonary mechanics, the formation of trapped lung, impairment of gas exchange or reduced cardiac output. This case showed that re-expansion of the lung and improvement in the blood gas and pulmonary function tests were achieved after the decortication and pleurectomy in a patient with trapped lung. We aimed in this case report that surgery should be having a priority of treatment options in late presenting patients with trapped lung.

#### Keywords

Pleural Effusion; Fibrinous Pleuritis; Surgery

DOI: 10.4328/JCAM.1281

Received: 06.09.2012 Accepted: 17.09.2012 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 343-5

Corresponding Author: Isa Döngel, Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi Göğüs Cerrahisi Ana Bilim Dalı, Isparta, Türkiye.

T. : +90 2462119251 F. : +90 2462370240 GSM: +905052228388 E-Mail: drdongel@hotmail.com

## Giriş

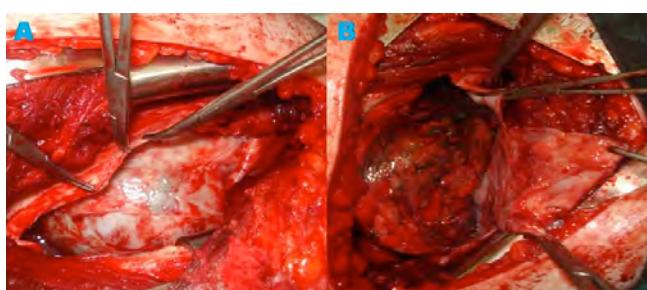
Plevral son derecede reaktif bir dokudur. Bu nedenle kan veya bakteriyel kontaminasyon gibi reaktif olaylar karşısında damarlanma artışından ciddi fibrozise kadar bir dizi değişiklikler gösterir. Plevral boşluğun kontaminasyonu plevrade kapiller permeabiliteyi artıracak plevral boşlukta eksudatif bir sıvının toplanmasına yol açmaktadır [1;2]. Plevra yaprakları arasında enfekte materyal varlığı ampiyem olarak kabul edilir. Bu patoloji çeşitli tedavi yöntemlerine rağmen yüksek mortalite ve morbiditeye sahiptir. Ampiyem kronikleştiğinde fibrozis nedeni ile aynı taraf hemitoraksta akciğer hapsolur, zamanla interkostal aralıklar daralır ve fibrotoraks meydana gelir [3;4]. Tedavi seçenekleri arasında cerrahi olarak plevrektomi ve dekortikasyon ameliyatı yapılabilir.

## Olgu Sunumu

51 yaşında erkek hasta, son bir yıldır devam eden nefes darlığı, yorgunluk, halsizlik, gece terlemesi ve kilo kaybı şikayetleri nedeni ile kliniğimize yatırıldı. Hikâyesinde dört defa plevra biyopsisi alındığı ve patolojik tanısının kronik fibrinöz plörit ile uyumlu olduğu öğrenildi. Fizik muayenede sağda solunum sesinin alınmadığı matitenin arttığı tespit edildi. Plevral mayı: glukoz: 115 mg/dl, LDH: 429 IU/L, proteğin: 3.2 g/dl idi. Laboratuvar bulgularında: beyaz küre: 17.3 K/mm<sup>3</sup>, CRP: 178 mg/L, ESH: 65 mm/h. Solunum fonksiyon ve kan gazı değerleri; preoperatif: FEV1: 2.49 (%68), FEV1/FVC: %102, pH: 7.5, PO<sub>2</sub>: 71.6 mmHg, PCO<sub>2</sub>: 37.8 mmHg, sO<sub>2</sub>: 95.8, postoperatif (1. ay) FEV1: 2.74 (%77), FEV1/FVC: %114, pH: 7.44, PO<sub>2</sub>: 83.9 mmHg, PCO<sub>2</sub>: 31.1 mmHg, sO<sub>2</sub>: 96.7 olduğu tespit edildi. Radyolojik olarak cerrahi öncesi ve sonrası postero-anterior akciğer grafilerinin görüntüsü izlenmektedir (Şekil 1: A,B). Hastanın akciğer ekspansiyonunun olmaması, tuzak akciğer bulgularının olması üzerine cerrahiye karar verildi. Hastaya sağ torakotomi ile dekortikasyon, plevrektomi yapıldı (Şekil 2: A,B). Postopertif patoloji sonucu yine fibrinöz plörit olarak geldi.



Şekil 1. PA akciğer grafisinde operasyon öncesi sağ hemitoraksta tama yakın havalanma kaybı izlenmektedir (A). PA akciğer grafisinde operasyon sonrası sağ hemitorakda belirgin havalanma artışı gözlenmektedir (B).



Şekil 2. İntrooperatif tuzak akciğer ve dekortikasyon, plevrektomi görüntüsü. (A, B)

## Tartışma

Viseral ve pariyetal plevradaki fibrin depozitlerinin inflamatuar yanıtın sorumlu olduğunu ilk kez Samson 1955 yılında bildirmiştir [5]. İnflamatuar reaksiyonun dağılımı, etiolojik nedenlere göre değişmekle birlikte kalın fibröz kabuktan, transudatif plevral efüzyonlarda ince membrana kadar değişik karakterde olabilmektedir. Plevral boşlukta biriken eksudatif karakterdeki pürülen sıvı ve kalınlaşmış fibröz kabuk akciğerin hareketini ve ekspansyonunu sınırlar, bu nedenlerle pulmoner kompreşyon ve atelektaziye neden olur. Bizim olgumuzda da son bir yıldır devam eden eksudatif karakterli plevral sıvı nedeniyle kronik fibrinöz plörit olduğu, sağ akciğerin tuzaklanmasına bağlı sağ hemitoraksın totale yakın fibrin depozitleri ile kaplanmış ve interkostal mesafelerin daralmış olduğu görüldü. Bu nedenle hastanın solunum kapasitesi ve kan gazı değerlerinin etkilendiği tespit edildi. Hastada bir yıl içerisinde alınan dört plevral biyopsinin kronik fibrinöz plöritle uyumlu gelmesi ve tarafımızdan bu nedeni teyit edilmesi sonucu hastaya torakotomi ile dekortikasyon ve plevrektomi yapıldı.

Dekortikasyon ve plevrektomi kararı medikal ve minimal invaziv cerrahi yöntemlerin yetersizliğinde, klinik olarak hastanın durumu değerlendirilerek verilir, başarısı uygun hasta seçimine bağlıdır. Dekortikasyon ve plevrektomide kalınlaşmış pariyetal plevranın çıkartılmasından ziyade viseral plevra üzerindeki tüm fibrin depozitlerinin çıkartılması ve akciğerin tam ekspansiyonunun sağlanması amaçlanmaktadır [5;6].

Rzyman ve ark. [7] kronik plevral ampiyemde yapılan dekortikasyon ve plevrektomi ameliyatının akciğer solunum fonksiyon testleri ve kan gazı üzerine etkilerini araştırdıkları çalışmalarında cerrahi sonrası istatistiksel olarak anlamlı düzelmelerin olduğunu bildirmiştirlerdir. Yine benzer şekilde Oruç ve ark. [8] dekortikasyon ameliyatı yapılan erişkin hastaların ameliyat öncesi ve ameliyat sonrası arteriyel kan gazı analizi, solunum fonksiyon testi ve akciğer perfüzyon sintigrafilerinin karşılaştırarak yaptıkları çalışmalarında dekortikasyon ile akciğer üzerindeki baskının ortadan kaldırıldığını, akciğer solunum fonksiyonlarının erken dönemde kısmen olmakla birlikte zamanla eski fonksiyonlarına geldiğini, kan gazı oksijen değerinin ameliyat sonrası dönemde önemli oranda düzeldiğini bildirmiştir. Bizim olgumuzda da kan gazı değerlerinde daha belirgin olmakla birlikte solunum fonksiyon testlerinde belirgin düzelleme olduğu, (ameliyat sonrası erken dönemde PO<sub>2</sub> saturasyonunda %12'lük artış) akciğer ekspansiyonunun klinik durumun başlangıcından bir yıl sonra yapılan cerrahiye rağmen sağlanabildiği, gece terlemelerinin kaybolduğu, fakat sağ hemitoraks hacmindeki küçülmeyen postoperatif erken dönemde de devam ettiği, pariyetal plevranın total çıkarılmasına rağmen interkostal mesafelerin tam düzelmeye gözlendi.

Sonuç olarak; Kronik plevral efüzyon nedeniyle tuzak akciğer olmuş hastalara cerrahi olarak dekortikasyon, plevrektomi yapılması postoperatif solunum fonksiyon testlerinde ve kan gazı değerlerinde anlamlı derecede, toraks asimetrisinde kısmen düzelleme sağlamaktadır. Özellikle genç hastalarda plevral efüzyona sekonder gelişmiş fibrinöz plörit ve tuzak akciğer olması durumlarda tedavi seçenekleri arasında cerrahının öncelikli olarak düşünülmesi gerektiği kanaatindeyiz.

**Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

**Kaynaklar**

1. Cassina PC, Hauser M, Hillejan L, Greschuchna D, Stomatis G. Video-assisted thoracoscopy in the treatment of pleural empyema : staged based management and outcome. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1999;117:234-8
2. Thurer RJ. Decortication in thoracic empyema: indications and surgical technique. *Chest Surg Clin North Am* 1996;6:461-90.
3. Topcu S, Çetin G. Ampiyemin Cerrahi Tedavisi. In: Üksel M, Kalayci GN, editors. *Göğüs Cerrahisi*. İstanbul: Bil Medya Grup; 2001. p. 383-402.
4. Gokce M, Okur E, Baysungur V, Ergene G, Sevilgen G, Halezeroglu S. Lung decortication for chronic empyema: effects on pulmonary function and thoracic asymmetry in the late period. *Eur J Cardiothorac Surg* 2009;36:754-8.
5. Samson PC. Some surgical considerations in pulmonary decortication. *Am J Surg* 1955;89:364-71.
6. Tong BC, Hanna J, Toloza EM, Onaitis MW, D'Amico TA, Harpole DH, Burfeind WR, et al. Outcomes of Video-Assisted Thoracoscopic Decortication. *Ann. Thorac. Surg.* 2010; 89: 220-5.
7. Rzyman W, Skokowski J, Romanowicz G, Lass P, Dziadziszko R. Decortication in chronic pleural empyema - effect on lung function. *Eur J Cardiothorac Surg* 2002;21:502-7.
8. Oruç M, Çakmak M, Eren Ş. Akciğer dekortikasyon ameliyatı yapılan erişkin hastaların ameliyat öncesi ve ameliyat sonrası arteriyel kan gazı analizi, solunum fonksiyon testi ve akciğer perfüzyon sintigraflerinin karşılaştırılması. *Turk Gogus Kalp Dama* 2012;20(1):111-5.

**How to cite this article:**

Döngel İ, Yazkan R, Yılmaz Ö. Should Surgery be Necessary in Late Period of Chronic Fibrinous Pleuritis? *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 343-5.



## Suicide Attempts with Sodium Hypochlorite Injection: Case Report

### Çamaşır Suyu Enjeksiyonu ile İntihar Girişimi: Oluşumu

Çamaşır Suyu / Sodium Hypochlorite

Cemil Kavalci<sup>1</sup>, Eylem Sezenler<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi Acil Tıp Kliniği, Ankara

<sup>2</sup>Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi Acil Tıp Ad, Edirne, Türkiye

#### Özet

İntihar girişimi tüm yaş gruplarını etkileyen bir sağlık problemidir. Sıklıkla ilaç, ateşli silah veya ası yoluyla yapılır. 35 yaşında erkek hasta acil servisimize 112 ekipleri tarafından intihar girişimi nedeniyle getirildi. Öyküsünden, yaklaşık 2 saat kadar önce intihar amacıyla her iki kolundan dirsek iç yüzüne IV yoldan çamaşır suyu enjekte ettiği öğrenildi. Fizik muayenesinde; sağ kolunda 3,5 cm çapında, sol kolunda 3 cm çapında kırmızı renkli ekimoz ve ödem vardı. Sistemik bir bulgusu yoktu. Hasta 24 saatlik gözlem sonucunda taburcu edildi.

#### Anahtar Kelimeler

Acil; İntihar; Çamaşır Suyu

#### Abstract

A suicide attempt is a health problem affecting all age groups. Suicides are usually by medicine overdose, gun-shot injury and hanging. 35 year old male patient was brought to our emergency department by 112 EMS due to suicidal attempt. Approximately two hours before the story of both arms, by iv injection of sodium hypochlorite was learned that he wants to commit suicide. On physical examination, his right arm 3,5 cm in diameter and his left arm 3 cm diameter red color ecchymosis and edema was present. There was no evidence of sistematic pathological finding. The patient was discharged after 24 hours of observation.

#### Keywords

Emergency; Suicide; Sodium Hypochlorite

DOI: 10.4328/JCAM.1298

Received: 18.09.2012 Accepted: 27.09.2012 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 346-8

Corresponding Author: Cemil Kavalci, Numune Eğitim ve Araştırma Hastanesi Acil Tıp Kliniği, Altındağ, Ankara, Türkiye.

GSM: +905055762819 E-Mail: cemkavalci@yahoo.com

## Giriş

İntihar girişimi tüm yaş gruplarını etkileyen bir sağlık problemdir. Sıklıkla ilaç, ateşli silah veya ası yoluyla yapılır. Literatürde sodyum hipoklorid enjeksiyonuyla ilgili bir vaka bulunmuştur [1]. Bu çalışmada çamaşır suyunun intravenöz (İV) yoldan enjeksiyonuyla intihar girişiminde bulunan bir vaka sunulmaktadır.

## Olu Sunumu

35 yaşında erkek hasta acil servisimize 112 ekipleri tarafından intihar girişimi nedeniyle getirildi. Öyküsünden; yaklaşık 2 saat kadar önce intihar amacıyla her iki kolundan dirsek iç yüzüne İV yoldan, % 5 lik çamaşır suyundan yaklaşık 10 ml enjekte ettiği öğrenildi. Bu şikayetle önce ilçe devlet hastanesine gitmiş, daha sonra hastanemize sevk edilmiş. Hastanın asker olduğu ve İV enjeksiyon konusunda eğitim almadığı, iğneyi dirsek iç yüzüne saplayarak, kan gelene kadar pistonu çekerek ilerlediği, kan gelince de enjeksiyonu yaptığı öğrenildi. Fizik muayenede hastanın genel durumu iyi, bilinc açıklandı. Kan basıncı 120/80 mmHg, Nabız 80/dakika idi. Sağ kolunda 3,5 cm çapında, sol kolunda 3 cm çapında kırmızı renkli ekimoz ve ödem (Resim1-2)



Resim 1. Hastanın sağ kolunda ödem ve ekimoz



Resim 2. Hastanın sol kolunda ödem ve ekimoz

vardı. Sistemik zehirlenme bulgusu yoktu. Hastaya 4 litre/dakika oksijen verildi. Hastanın diğer hastanede el bileğinden açılan damar yolları çıkarılarak daha proksimalden damar yolu açıldı. Hastanın tam kan, biyokimya ve arteriyel kan gazı sonuçları

normaldi (pH=7,35, pO<sub>2</sub>=95 mmHg, pCO<sub>2</sub>=38 mmHg, AST=30 IU/L, ALT=25 IU/L). Her iki dirsekten Doppler Ultrasonografik inceleme yapıldı. Damar yapılarının sağlam olduğu görüldü (Resim 3-4). Hasta 24 saatlik gözlem sonrası taburcu edildi.



Sağ kol alt ekimoz ve ödem.

Resim 3. Hastanın sağ kol doppler ultrasonografik inceleme görüntüsü



Sol kol alt ekimoz ve ödem.

Resim 4. Hastanın sol kol doppler ultrasonografik inceleme görüntüsü

## Tartışma

Çamaşır suyu evlerde temizlik amacıyla yaygın olarak kullanılan bir kimyasal çözeltidir. Kazaya oral yoldan alınmasına bağlı olarak ölüm vakaları bildirilmiştir. Solunum yoluyla maruziyet sonucu nefes darlığı ve akciğer ödemi gelişebilmektedir [2;3]. Hoy [1], kaza ile hemodiyaliz sıvısına çamaşır suyu karıştırılan bir vaka bildirmiştir. Hastada bu kaza sonucu yaygın hemoliz, siyanoz, serum elektrolitlerinde ani düşme, hiperkalemi ile kalp ve solunum durması geliştiğini bildirmiştir. Gelişen kalp ve solunum durmasını da hiperkalemiye bağlamıştır. Hastanın Sodyum tiyosülfat ile tedavi edildiğini ve iyileştiğini bildirmiştir. Bizim hastamızda çamaşır suyunun sistemik dolaşma

geçmemiş olması nedeniyle bu tür sistemik komplikasyonlar görülmemiştir. Herrman [3], tedavi amaçlı çamaşır suyu kullanımının lokal komplikasyonları arasında lokal ağrı ve ödem olduğunu bildirmiştir. Froner [4], ise intihar amaçlı 300mg oral diazepam ve 0.3 ml, %5.25'lük çamaşır suyu solüsyonu alan bir hasta bildirmiştir. Hastada çamaşır suyu enjeksiyonuna ait herhangi bir lokal bulgu olmadığını bildirmiştir. Bizim hastamızın ise her iki kolunda lokal ödem mevcuttu. Yapılan Doppler Ultrasonografik inceleme sonucu damarlarda akımın normal olduğu görüldü. Hastanın enjeksiyon eğitimi almamış olması nedeniyle intihar girişimi başarısız olduğu düşünülebilir. Çamaşır suyu sistemik dolaşma geçmemesi sonucu ciddi olabilecek komplikasyonlar görülmemiş olabilir. Ayrıca son dönemde üretilen çamaşır sularının, düşük konsantrasyonda üretiliyor olması ölümcül komplikasyonları önlemiş olabilir.

Çamaşır suyu alkali yapıda kimyasal bir çözeltidir. Kazayla veya intihar amaçlı olarak alınması ciddi sonuçlara yol açabilir. Hemoliz ve hiperkalemiye bağlı olarak kalp ve solunum durması gelişebilir. Sağlık çalışanları bu konuda uyanık olmalıdır.

#### **Çıkar Çakışıması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Hoy RH. Accidental systemic exposure to sodium hypochlorite (Chlorox) during hemodialysis. *Am J Hosp Pharm.* 1981; 38(10): 1512-4.
2. Arévalo-Silva C, Eliashar R, Wohlgelernter J, Elidan J, Gross M. Ingestion of caustic substances: a 15-year experience. *Laryngoscope.* 2006; 116(8): 1422-6.
3. Herrmann JW, Heicht RC. Complications in therapeutic use of sodium hypochlorite. *J Endod.* 1979; 5(5): 160.
4. Froner GA, Rutherford GW; Rokeach M. Injection of Sodium Hypochlorite by Intravenous Drug Users. *JAMA* 1998; 258(3): 325.

#### **How to cite this article:**

Kavalçı C, Sezenler E. Suicide Attempts with Sodium Hypochlorite Injection: Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 346-8.



## A Combination of Persistent Left Superior Vena Cava and Subaortic Discrete Membrane

### Persistan Sol Süperior Vena Kava ve Subaortik Diskret Membran Birlikteliği

Persistan Sol Süperior Vena Kava ve Subaortik Diskret Membran / Persistent Left Superior Vena Cava and Subaortic Discrete Membrane

Sait Demirkol<sup>1</sup>, Şevket Balta<sup>2</sup>, Murat Ünlü<sup>3</sup>, Zekeriya Arslan<sup>3</sup>, Mustafa Kürklüoğlu<sup>4</sup>

<sup>1</sup>Gülhane Askeri Tıp Akademisi Kardiyoloji Bilim Dalı, Ankara, <sup>2</sup>Beytepe Asker Hastanesi Kardiyoloji Kliniği, Ankara,

<sup>3</sup>Gelibolu Asker Hastanesi Kardiyoloji Kliniği, Çanakkale, <sup>4</sup>Gülhane Askeri Tıp Akademisi Kalp Damar Cerrahisi Bilim Dalı, Ankara, Türkiye

Çalışma 01-04 Mart 2012 tarihinde Antalya'da Maxx Royal Kongre Merkezi'nde  
8. Kardiyoloji ve Kardiyovasküler Cerrahide Yenilikler Kongresinde pp-180 sayılı poster olarak sunulmuştur.

#### Özet

Persistan sol süperior vena kava anomalisi en sık gözlenen konjenital ven anomalisidir. Genel populasyonda %0.5 oranında gözlenir. Persistan sol süperior vena kava anomalisine atrial septal defekt, ventriküler septal defekt, biküspit aorta, aort koartasyonu ve kor triatriatum gibi kardiyovasküler anomalilikler %3-10 oranında eşlik eder. Diskret subaortik membran yetişkinlerde subaortik stenozun nadir nedenleri arasındadır. Aort kapağının altında fibröz veya fibromusküler yüzük şeklinde oluşan diskret aortik mebran izole olarak görülmüşinin yanında konjenital kardiyak anomalilerle birlikte de görülebilir. Biz de ilk kez subaortik diskret membran ile persistan sol süperior vena kava birlikteliğini tanımladık.

#### Anahtar Kelimeler

Persistan Sol Süperior Vena Kava; Subaortik Diskret Membran; Transtorasik Eko-kardiyografi

#### Abstract

A persistent left superior vena cava is the most common congenital anomaly involving the systemic veins. It occurs in approximately 0.5% of the general population and 3% to 10% of patients with other cardiovascular abnormalities including atrial septal defect, ventricular septal defect, bicuspid aortic valve, coarctation of aorta, and cor-triatriatum. A discrete subaortic membrane is a rare cause of subaortic stenosis in adult. It may present as in an isolated form as fibrous or fibromuscular ring below the aortic valve or in association with other congenital anomalies. This is the case of a persistent left vena cava superior associated with a subaortic discrete membrane.

#### Keywords

Persistent Left Superior Vena Cava; Subaortic Discrete Membrane; Transthoracic Echocardiography

DOI: 10.4328/JCAM.1296

Received: 16.09.2012 Accepted: 07.10.2012 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 349-51

Corresponding Author: Şevket Balta, GATF Kardiyoloji Bilim Dalı, Etlik-06018, Ankara, Türkiye.

E-Mail: drsevketb@gmail.com

## Giriş

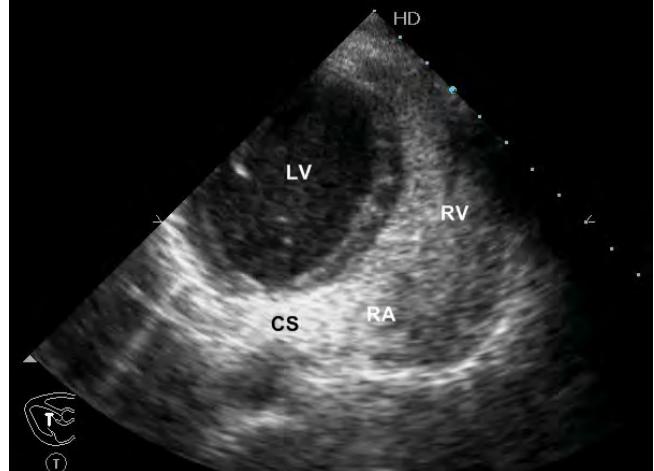
Persistan sol süperior vena kava (PSSVK) sistemik ven anomalilerinin en sık nedenidir. Genel populasyonda %0.3-0.5 oranında görülür ve bu hastaların da %1.5-10'u atrial septal defekt, ventriküler septak defekt, biküspit aorta, aort koartkasyonu ve kor triatriatum gibi diğer konjenital kalp anomalileri ile birlikte dir[1]. Persistan sol süperior vena kava izole veya kompleks patolojinin komponenti olması farklı klinik sonuçlara neden olabilir.

Sol ventrikül çıkış yolunda gradient oluşturan subaortik diskret membran nadir görülen kardiyak anomaliler arasındadır. Subaortik diskret membran sol ventrikül çıkış yolunda darlığı neden olması açısından klinik olarak önem arz etmektedir. Subaortik membran izole olarak veya kompleks anatomik bir defektin komponenti olarak ortaya çıkabilir[2]. Subaortik diskret membran diğer konjenital kalp hastalıklarına %6.5 oranında eşlik etmektedir[3]. Biz burada persistan sol süperior vena kavaya subaortik diskret membranın eşlik ettiği vakayı tanımladık.

## Olgu Sunumu

Yirmi dört yaşında erkek hasta kliniğimize çarpıntı ve nefes darlığı şikayeti ile başvurdu. Hastanın özgeçmişinde özellik yoktu. Fizik muayenesinde arteriel tansiyonu 130/80 mmHg, kalp hızı 80/dk ve sağ ikinci interkostal aralıkta 2/6 sistolik üfürüm duyuldu. Rutin kan biyokimyası normal sınırlarda idi. Çekilen istirahat EKG'si normal sinüs ritmindeydi ve patolojik bulgu yoktu. Posterior anterior akciğer grafisinde patoloji saptanmadı. İki boyutlu transtorasik ekokardiyografisinde (2-D TTE) sol ventrikül sistolik fonksiyonları, tüm kalp boşlukları normaldi. 2-D TTE parasternal uzun eksen görüntüde koroner sinüs dilatasyonu ve sol ventrikül çıkış yolunda septumda subaortik membran saptandı (Resim 1A). 2-D TTE apikal dört oda görüntüde CW Doppler ile subaortik bölgede diskret membrana bağlı 30/15 mmHg gradient saptandı (Resim 1B). Koroner sinüs dilatasyonu nedeniyle PSSVK tanısı doğrulamak için 2-D TTE apikal dört oda görüntüde hastaya sol antekubital veden ajite salin enjeksiyonu yapıldı. Ajite salin sonrası sırasıyla koroner sinüs, ardından sağ atrium ve sağ ventrikülde kontrast dolusu gözlendi (Resim 2) ve hastaya persistan sol süperior vena kava tanısı kondu. Bu hastaların ileri yaşlarında subaortik diskret membran nedeniyle ciddi aort darlığına bağlı cerrahi tedavi gerekebilir. Bu hastalarda patoloji bilinmediğinde yapılacak santral venöz girişimler ciddi komplikasyona neden olabilir. Bu nedenle hastaya düzenli ekokardiyografi kontrolleri önerildi. Ayrıca hastaya yapılacak olası santral venöz girişimler öncesi sağlık personelini uyar-

ması önerildi. Biz de klinik önemi nedeniyle bu nadir birlikteliği sunmayı uygun bulduk.



Resim 2. Transtorasik ekokardiyografide apikal dört oda görüntüsüyle hastaya sol antekubital veden ajite salin enjeksiyonu sonrası sırasıyla koroner sinüs, ardından sağ atrium ve sağ ventrikülde kontrast dolusunun gözlemlenmesi.

## Tartışma

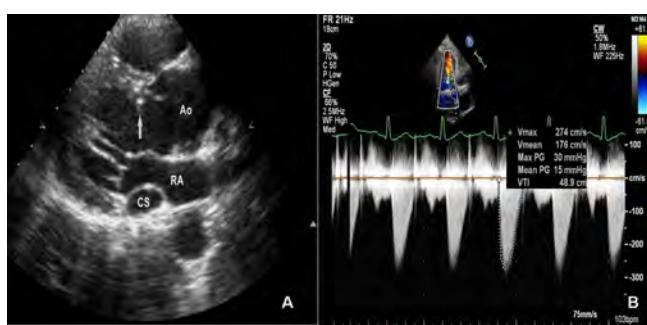
Persistan sol süperior vena kava genellikle başka nedenle yapılan tetkikler esnasında tesadüfen saptanır. PSSVK %90 oranında sağ atriuma koroner sinüs aracılığı ile bağlanırken, %10 hastada direkt sol atriuma açılır[1]. PSSVK embriyolojik hayatı sol anterior kardinal venin proksimal parçasının gerilememesi sonucunda sol superior vena kava direk olarak koroner sinüse açılır. Artan venöz dönüse bağlı olarak koroner sinüs zamanla dilate olur.

PSSVK asemptomatik bir patoloji olmasına rağmen, kalıcı kater ve kalp pili amacıyla venöz girişim yapılacak hastalarda anatomi varyasyondan dolayı klinik önem arz etmektedir [4]. Çünkü bu hastalarda patoloji önceden bilinmediğinden yapılacak girişime bağlı olarak ciddi komplikasyonlar gelişebilir.

PSSVK'ya atrial septal defekt, ventriküler septal defekt, kor triatriatum, biküspit aorta ve aort koartkasyonu gibi birçok kardiyak anomaliler eşlik etmektedir. Biz burada PSSVK'ya nadiren eşlik eden diskret subaortik membran birlikteliğini tanımladık. Diskret subaortik membran yetişkinlerde subaortik stenozun nadir nedenleri arasındadır. Bu patoloji aort kapağın hemen altında fibröz veya fibromusküler ring şeklinde izole olabileceği gibi, diğer konjenital anomalilere de eşlik edebilir[3].

Subaortik diskret membran sadece subartik alanı etkilemekle kalmaz aynı zamanda oluşturduğu akım türbülansıyla komşu kapaçıklarda anotomik bozukluklara neden olabilir. Bunun sonucu olarak aort kapak yetmezliği veya darlığı, sol ventrikül fonksiyonlarında azalma ve infektif endokardite neden olabilir [2]. Bu hastalarda subaortik membran bağlı aort kapak darlığında zamanla artış olabilir. Bu durum kendini klinik olarak efor kapasitesinde azalma, nefes darlığı, aşırı yorgunluk ve çarpıntı yakınması ile gösterir[5]. Ayrıca hastalarda ani hemodinamik bozukluklar ve ateş yükseliği gibi semptomlar akla enfektif endokardit olasılığını getirmelidir.

Bizim vakamızda subaortik diskret membrana bağlı hafif derece aort kapak üzerinde gradiente vardı. Hastanın şikayetleri her ne kadar aort kapak darlığına bağlı şikayetlere benzese de; akciğer grafisinin normal olmasının yanında ekokardiyografik olarak da hafif derecede aort darlığı saptanması hastanın şikayet-



Resim 1. Transtorasik ekokardiyografi parasternal uzun eksen görüntüde koroner sinüs dilatasyonu ve sol ventrikül çıkış yolunda septumda subaortik membran (A) ve apikal dört oda görüntüde CW Doppler ile subaortik bölgede diskret membrana bağlı 30/15 mmHg gradient saptanması(B).

lerinin kardiyak nedene bağlı olmadığını tespit etmemizde yardımcı oldu. Bu nedenle hastaya bu şartlarda ek tedavi düşünülmeli ve rutin ekokardiyografik kontroller önerildi. Bu bağlamda, bu tür hastaların erken yaşlarda tespit edilip gerektiğinde tedavi edilmeleri ilerde oluşacak geriye dönüşümsüz patolojilerin oluşumuna engel olur. Aortik odakta sistolik üfürüm tespit edilen genç hastalar mutlaka ekokardiyografi ile subaortik membran açısından değerlendirilmelidir.

#### **Çıkar Çakışıması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Biffi M, Boriani G, Frabetti L, Bronzetti G, Branzi A. No Left superior vena cava persistence in patients undergoing pacemaker or cardioverter-defibrillator implantation: a 10-year experience. *Chest*. 2001;120(1):139–44.
2. Valeske K, Huber C, Mueller M, Böning A, Hijjeh N, Schranz D, et al. The dilemma of subaortic stenosis--a single center experience of 15 years with a review of the literature. *The Thoracic and cardiovascular surgeon*. 2011;59(5):293–7.
3. Kelly DT, Wulfsberg E, Rowe RD. Discrete Subaortic Stenosis. *Circulation*. 1972;46:309–22.
4. Ganjehei L, Barekatain A, Razavi M, Massumi A, Rasekh A. Biventricular intracardiac device implanted in a patient with persistent left superior vena cava. *Texas Heart Institute journal*. 2012;39(4):586–7.
5. Butany J, Vaideeswar P, David TE. Discrete subaortic membranes in adults--a clinicopathological analysis. *Cardiovascular pathology : the official journal of the Society for Cardiovascular Pathology*. 2009;18(4):236–42.

#### **How to cite this article:**

Demirkol S, Balta Ş, Ünlü M, Arslan Z, Kürklüoğlu M. A Combination of Persistent Left Superior Vena Cava and Subaortic Discrete Membrane. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 349-51.

## Intravenous Immunoglobulin Treatment in the Management of Myasthenic Crisis: Case Report

### Myastenik Kriz Yönetiminde İtravenöz İmmunoglobulin Tedavisi: Olgu Sunumu

Myastenik Kriz Yönetimi / The Management of Myasthenic Crisis

Ebru Salman<sup>1</sup>, Fahri Yetişir<sup>2</sup>, Banu Yürekli<sup>3</sup>, Alper Bozkurt<sup>4</sup>, Mehmet Kılıç<sup>5</sup>

<sup>1</sup>Atatürk Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Anesteziyoloji ve Reanimasyon Kliniği, Ankara, <sup>2</sup>Atatürk Hastanesi Genel Cerrahi Kliniği, Ankara,

<sup>3</sup>Bozyaka Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Endokrinoloji, İzmir, <sup>4</sup>Etilik İhtisas Hastanesi Radyoloji Kliniği, Ankara,

<sup>5</sup>Yıldırım Beyazıt Üniversitesi, Genel Cerrahi Kliniği, Ankara, Türkiye

#### Özet

Myastenia gravis primer olarak postsinaptik bileykeyi etkileyen otoimmün bir hastalıktır. İstemli kaslarda kuvvet kaybı ve kolay yorulmayla karakterizedir. Akut ataklar solunum yetmezliği ve yutkunma güçlüğüyle hayatı tehdit edebilir. BUNDAN 4-5 ay önce halsizlik ve yorgunluk şikayetleri başlayan 24 yaşında erkek hasta nefes almada ve yutkunmada güçluğun artması üzerine yoğun bakıma alındı. Pnömoni tespit edilen hasta, ileri tetkiklerinde myastenia gravis tanısı aldı. İtravenöz İmmunoglobulin (IVIG) tedavisi için merkezimize kabul edilen hasta 28 günlük yoğun bakım takibinden sonra timektomi için dış bir merkeze yönlendirildi. Bu olgu sunumunda, pnömoni ve solunum yetmezliği ile yoğun bakıma kabulü sonrasında myastenia gravis tanısı alan bir hastanın yoğun bakım yönetimi, myastenik krizi tetikleyen faktörler ve akut atak tedavisi tartışılmıştır.

#### Anahtar Kelimeler

Myastenia Gravis; Pnömoni; İmmunoglobulin

#### Abstract

Myasthenia gravis is an autoimmune disease affecting primarily postsynaptic junction. It is characterized by the weakness and fatigability of voluntary muscles. Acute exacerbations may be life-threatening because of respiratory failure or swallowing difficulties. A 24 year old male patient who had weakness and tiredness for about 4-5 months, was admitted to the intensive care with respiratory failure and difficulty in swallowing. Myasthenia gravis was diagnosed with future investigations. The patient who was admitted to our hospital for IVIG treatment stayed 28 days in Intensive-care unit (ICU) and patient was transferred for thymectomy to another medical center. In this case, the management of a patient who was diagnosed as myasthenia gravis after admission to ICU, with respiratory failure and pneumonia, factors affecting myasthenic crisis and acute attack treatment were discussed.

#### Keywords

Myasthenia Gravis; Pneumonia; Immunoglobulin

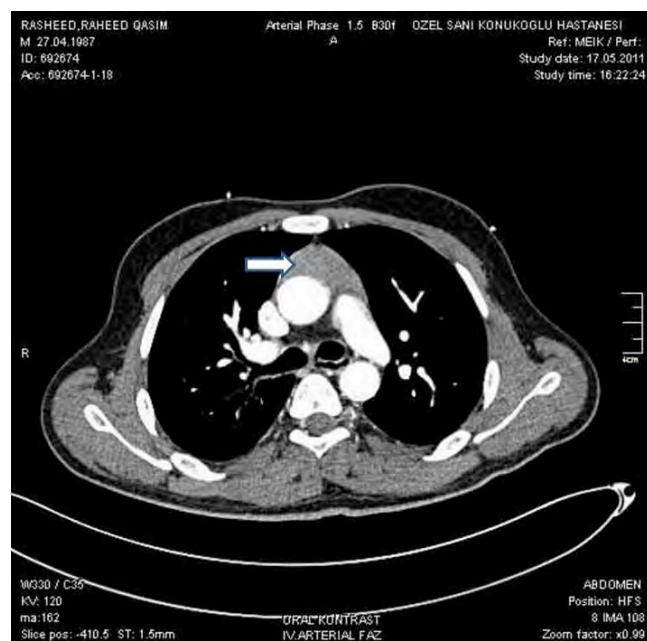
## Giriş

Myastenia gravis (MG) primer olarak postsinaptik bileşkeyi etkileyen otoimmün bir hastalıktır. Hastaların %85-90'ında Ig G asetilkolin reseptör antikorları bulunur (Anti-AchR) [1]. Egzersizle artan kuvvet kaybı ve kolay yorulma ile kendini gösterir. Hastalığın insidansı 1/300.000'dir ve genç kadınlarla, yaşlı erkeklerde sık görülür [2]. Solunum yetmezliği ve yutkunma güçlüğü hayatı tehdit edebilir. Myastenia gravisli olguların akut atak tedavisinde, kortikosteroidlerin,immün sistemi baskılayan ajanların, plazmaferezin ve intravenöz immünoglobulin tedavisinin yeri vardır [2]. Antikolinesterazların tedaviye eklenmesi önerilmektedir. Tedavi hem sinir-kas kavşağı hem de immün sisteme fonksiyon bozukluğuna yönelik olmalıdır.

Bu olgu sunumunda pnömoni ve solunum yetmezliğiyle yoğun bakıma kabulü sonrasında myastenia gravis tanısı alan bir hastanın yoğun bakım yönetimi ele alınmıştır.

## Olgu Sunumu

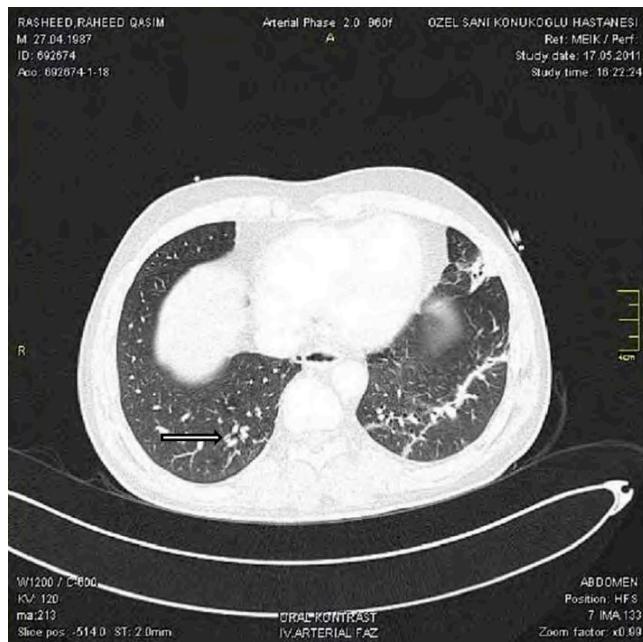
Yirmidört yaşında erkek hastanın 4-5 ay kadar önce gelişen güçsüzlük şikayeti mevcutmuş. Son iki hafta içinde gelişen nefes almada ve yutkunma da güçlüğü olan hasta solunum sıkıntısının giderek artmasıyla dış merkeze başvurmuş. Dış merkezde yapılan incelemede, tam kan sayımında beyaz küre: 22.800 ve nötrofil: 82.3% nötrofil hakimiyeti gözlenmiştir. Genel durumu kötüleşen ve biliç bulanıklığı gelişen ve arteriyel kan gazında pH:7.198, pCO<sub>2</sub>:85.5, pO<sub>2</sub>:22 olan hasta entübe edilmiş. Çekilen toraks tomografisinde sağ akciğer alt lobda peribronşiyal kalınlaşma ve yer yer retikulonodüler görünüm tespit edilmiştir.(Resim 1) Ön mediastende yaklaşık 2 cm çapında içerisinde mili-



Resim 2. Ön mediastende 2 cm çapında, içinde milimetrik kalsifikasiyonlar bulunan timus dokusu(okla işaretlenmiş).

miş. Antibiyoterapinin 6. gününde lökositozu ve CRP'si gerileyen hastanın Akciğer grafisinde infiltrasyon izlenmemiştir. Ancak kas güçsüzlüğü ve solunum sıkıntısı devam eden hasta nörolojiye devredilmiştir. Yapılan EMG'sinde ileti hızları normal bulunmuştur. Myasthenia gravis olduğu düşünülen hastaya pridostigmin tedavisi (3x2) başlanmıştır. Prednol puş (250 mg) tedavisinin ardından, prednol dozu 1 mg.kg<sup>-1</sup> 'a geçilerek plazmaferez yapılması ya da IVIG tedavisi almak üzere hastanemize nakledildi.

Yogun bakımlımıza kabulünde hastanın genel durumu orta, bilinci açık, koopere ve entübeydi. Yapılan nörolojik muayenesinde üst ve alt ekstremitelerde proksimalinde, sırasıyla -3/5 ve -2/5 güçsüzlük mevcuttu. Yoğun bakım ünitesine kabulünde hastanın rutin tetkikleri ve kan, idrar derin trakeal aspirat kültür örnekleri gonderildi. Nöroloji bölümyle konsulte edilen hastaya pridostigmin tablet 6x1 başlanması, hastanemizde plazmaferez yapılmadan, IVIG tedavisinin düzenlenmesine karar verildi. Hastanın asetilkolin reseptör antikoru gönderildi. Asetilkolin reseptör antikoru düzeyi 150 nm.L-1 olarak geldi Pnömoni tedavisi İnfeksiyon Hastalıkları Kliniği ile konsulte edildi. Kas sinir kavşağıını etkileyebileceğinden, vankomisin tedavisi kesilerek, tedaviye meropenem 3x1 ile devam edilmesi uygun görüldü. IVIG tedavisi başlanabilmesi için, Ig A düzeyi görüldü. Düzeyi normal sınırlar daydı. IVIG tedavisi yönünden Kardiyoloji ve Dahiliye bölümlerinden konsultasyon istendi. EKG'si ve yatak başı EKO'sunda sistolik fonksiyonları normal olan hasta, kardiyak açıdan stabil olarak değerlendirildi. Hastaya IVIG 0.4 mg.kg.gün<sup>-1</sup> başlandı. Yoğun bakımda iki kür halinde 5 er gün IVIG tedavisi alan hasta, serviste de 1 kür daha IVIG tedavisi aldı. Hastanın böbrek fonksiyonlarında ve idrar çıkışları takibinde sorun yaşanmadı. Hastanın kan basıncı radyal arterden, invaziv olarak izlendi. Derin trakeal aspirat kültüründe stafilokok lensus üremesi üzerine hastaya teikoplanin tedavisi başlandı. Hastaya yoğun bakıma yattığının 18. gününde trakeostomi açıldı. Birinci kür IVIG tedavisi sonrasında 1 kez ve ikinci kür tedaviden sonra 2 kez ekstübe edilen hastamız yüksek doz Ig-Lg tedavisine rağmen 1. ve 2. kür uygulamadan sonra kas güçsüzlüğünde tekrar artış olması üzerine ekstü-



Resim 1. Sağ akciğer alt lobda peribronşiyal kalınlaşma ve retikulonodüler görünüm (okla işaretlenmiş bölge)

metrik 1-2 adet kalsifikasiyon bulunan ve muhtemelen timusa ait yumuşak doku dansitesinin mevcut olduğu gözlenmiştir.(Resim 2) Kranial BT, üst abdomen BT, alt abdomen BT, Kraniyel MR ve servikal MR görüntülemeleri normal olan hastaya pnömoni tanısı konularak, meropenem 3x1gr. ve vankomisin 1x1gr. tedavisi başlanmıştır. CRP 'si 141 olan hastada, SIMV modunda mekanik ventilatör desteği altında antibiyotik tedavisine devam edil-

basyonlarından 24 saat kadar sonra, reentübe edildi. Ventilatör takibine SIMV+PS modunda PS:10 mbar, Tidal volum(TV):6 ml/kg,frekans(f):12/dak, FiO2:0.5 PEEP:5mbar ile başlandı. Hasta ekstübasyon kriterlerini karşıladığından ekstübe edildi. Ancak ekstübasyonundan 24 saat kadar sonra kas güçsüzlüğü artan hastanın reentübasyonu gerekti. Yoğun bakımımıza kabulünün 25. gününde mekanik ventilatörden ayrılan ve pnömoni tedavisi tamamlanan hasta, yoğun bakımımıza yatişinin 28.gününde servise nakledildi. Hasta timektomi için bir başka merkeze yönlendirilerek taburcu edildi.

### Tartışma

Myastenia gravis istemli kaslarda zayıflık ve kolay yorulmayla karakterize otoimmün bir hastalıktır. Jeneralize olguların %90'ında nikotinik asetilkolin reseptörlerine karşı gelişen Ig G ototantikorları mevcuttur [3]. Akut myastenik krizler yutkunma ve solunum güçlüğü nedeniyle hayatı tehdit edebilir. Bulbar ve respiratuar kasların güçsüzlüğüne bağlı olarak gelişen solunum yetmezliği ve trakeal sekresyonlarının olası aspirasyonu sonrası gelişen pnömoni hastamızda alitta yatan myastenia gravisı tetikleyerek, myastenik kriz gelişimine yol açmış olabilir [4]. Myastenik olguların akut tedavisine başlamadan önce krizin myastenik ya da kolinerjik kökenli olduğunu ayırmayı yapılmalıdır [5]. Bizim olgumuzda, hasta pnömoni teşhisiyle yoğun bakım ünitesine kabulünden sonra myastenia gravis tanısı aldığından prostigmin testine gerek duyulmadı.

Myastenia gravisli olgularda kardiyak sorunlar, enfeksiyon, yüksek doz kortikosteroid kullanımı veya steroidin ani kesilmesi myastenik krizi tetikleyebilir [3]. Myastenia gravisli olgularda, kas-sinir kavşağıını etkilediği bilinen aminoglikozid, makrolid, ve florokinolon grubu antibiyotiklerin myastenik krizi tetikleyebileceğini bilinmektedir. Gentamisin, tobramisin ve amikasin asetilkolinin presinaptik salınımını etkiler [6]. Eritromisin nöromusküler iletiyi presinaptik yolak üzerinden etkileyerek, myastenik krizi tetikleyebilir. Azitromisin ve telitromisin kullanımına bağlı tetiklenen myastenik ataklar bildirilmiştir [6]. Bizim olgumuzda da pnömoni tedavisi için meropenem ve vankomisin tedavisi başlanmıştır. Bu antibiyoterapi kombinasyonu varolan myasteni atağını daha da artırmış olabilir.

Kortikosteroidler imünsupresif etkilerinden dolayı myastenia gravisin tedavisinde etkili olmalarına rağmen, iyonik kanallar aracılığıyla asetilkolin reseptörünü bloke eder ve kas kontraktüritesini olumsuz yönde etkileyebilir [7].

Myastenik kriz tedavisinde, IVIG ile ya da plazmaferezle dolaşındaki antikorların temizlenmesi, immün supresif tedaviyle AchR karşı gelişen otoantikorların sentezinin baskılanması önerilmektedir. Bu olguda myastenik kriz tedavisinde kortikosteroid ve IVIG kombinasyonu tercih edilmiştir. Plazmaferez ve imunadsorpsiyon ile plazmaferez IVIG tedavisine alternatif yöntemlerdir. Özellikle, imunadsorpsiyon plazmaferez yöntemiyle AchR antikorları, replasman sıvısına ihtiyaç duyulmadan seçici olarak absorbe edilmektedir [3]. Klasik plazmaferez yönteminde ise, santral venöz kateter kullanımına ve replasman sıvısı olarak verilen kolloidlerin kullanımına bağlı riskler söz konusudur [8]. Intravenöz immünoglobulin tedavisinin etkinliği ilk olarak idiotipik trombositopenik purpura (ITP) gösterilmiştir. Myastenia gravisin akut atak tedavisinde intravenöz immunoglobulinin 1984'ten beri kullanılmaktadır [2]. Intravenöz immunoglobulinin

5 gün 0.4-1 mg.kg-1 dozda immün yanımı modüle ederek etkili olabileceği belirtilmektedir [2]. IVIG'nin AchR bağlanması için kompetisyonu, Fc reseptör pozitif inflamatuar hücrelerin motor son plağa bağlanması engellenmesi olası etki mekanizmalarıdır. MG 'de klinik düzelme AchR'e karşı gelişen otoantikor düzeyindeki azalmayla korele değildir [3].

IVIG tedavisiyle gelişebilecek yan etkiler, ateş, baş ağrısı, bulantı, alerjik reaksiyonlar, akut böbrek yetmezliği, aseptik menenjittir. Tedavinin maliyeti plazmaferezde göre oldukça yüksektir [2]. Bizim hastamızda tedavi süresince, baş ağrısı dışında bir yan etki gelişmedi.

Myastenik krizde yoğun bakım ünitesine kabul edilen hastaların tedavisinde solunum parametrelerinin dikkatle izlenmesi ve gelişen komplikasyonlara uygun destek tedavi önceliklidir. Myastenik krizli olgularda, IVIG ve kortikosteroid tedavisi hayatı tehdit eden solunum yetmezliği ve yutma güçlüğü ortadan kaldırılmasında tercih edilebilecek, etkin bir yöntemdir.

Sonuç olarak, IVIG tedavisi altında hastaların ekstübasyon kriterlerini karşılamasına rağmen kas güçlüğüne tekrarlayabileceği akılda tutulmalıdır. Hastaların yoğun bakımda yatis süresinin kısalması ve trakeostomiye gidişin engellenmesinde, plazmaferez veya Ivlg ile birlikte uygun immün supresif ajanın kombinasyonuyla yapılacak ileri randomize kontrollü çalışmalar yol gösterici olacaktır.

### Çıkar Çağırması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çağırması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### Kaynaklar

- 1.Cheiza J.T, Fleming I, Parry N, Skelton V.A.Maternal myasthenia gravis complicated by fetal arthrogryposis multiplex congenita.Int J Obstet Anesth 2011;20(1):79-82.
- 2.Gajdos P, Chevret S, Toyka KV.Intavenous immunoglobulin for myasthenia gravis. The Cochrane Collaboration (Rev).2008;23(1):CD002277.
- 3.Yosunkaya A, Çelik JB, Tuncer S, Topal A, Ökesli S. Myastenia Gravis ve İmunoadsorpsiyon Plazmaferez.(Olgu Sunumu) T Klin Tip Bilimleri 2002;22:578-82.
- 4.Scherer K, Bedlack R.S, Simel DL,MHS.Does this patient have myasthenia gravis?JAMA 2005;293(15):1906-15.
- 5.Kothari J.M, DO.Studies in myasthenia gravis :Review of a twenty year old experience in over 1200 patients.JAOA 2004;(9):377-84.
- 6.Gunduz A, Turedi S, Kalkan A,Nuhoglu I. Levofloxacin induced myasthenia crisis. Emerg Med J 2006;23(8):662.
- 7.Miller RG, Milner -Brown HS, Mirka A. Prednison induced worsening of neuromuscular function in myasthenia gravis.Neurology 1986;36(5):729-32.
- 8.Hirayama K.Apheresis for neuromuscular diseases.Jpn J Apheresis.1995;14(1):4-7.

### How to cite this article:

Salman E, Yetişir F, Yürekli B, Bozkurt A, Kılıç M. Intravenous Immunoglobulin Treatment in the Management of Myasthenic Crisis: Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 352-4.



## A Rare Hepatic Tumor; Hepatic Epithelioid Hemangioendothelioma

## Nadir Bir Karaciğer Tümörü; Hepatik Epiteloid Hemanjioendotelyoma

Hepatik Epiteloid Hemanjioendotelyoma / Hepatic Epithelioid Hemangioendothelioma

Elif Ülker Akyıldız<sup>1</sup>, Şaduman Balaban Adım<sup>1</sup>, Özlem Saraydaroglu<sup>1</sup>, Ekrem Kaya<sup>2</sup>, Gürsel Savci<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Patoloji Anabilim Dalı, <sup>2</sup>Genel Cerrahi Anabilim Dalı, <sup>3</sup>Radyoloji Anabilim Dalı,  
Uludağ Üniversitesi Tip Fakültesi, Bursa, Türkiye

### Özet

Karaciğerin primer sarkomları tüm karaciğer tümörlerinin %1'ini oluşturur. Bu sarkomların onde gelen iki histolojik tipi hepatik epitelioid hemanjioendotelyoma ve anjiosarkomdur. Epiteloid hemanjioendotelyoma vasküler orijinli bir tümör olup yumuşak dokuyu ve organları tutar. Karaciğerin primer epitelioid hemanjioendotelyoması ilk kez 1984 yılında Ishak tarafından tanımlanmıştır ve insidansı 1/100.000 dir. Çalışmamamızda patoloji departmanına kolanjiosellüler karsinom öntanısı ile gönderilen ve primer hepatik epitelioid hemanjioendotelyoma tanısı alan 68 yaşındaki kadın hasta literatür eşliğinde sunulmuştur.

### Anahtar Kelimeler

Karaciğer; Sarkoma; Epiteloid Hemanjioendotelyoma

### Abstract

Primary sarcomas of the liver account for about 1% of all liver tumors. Two basic histological forms of these sarcomas are hepatic epithelioid hemangioendothelioma and angiosarcoma. Epithelioid hemangioendothelioma is a tumor of vascular origin that involves soft tissues and organs. Primary epithelioid hemangioendothelioma of the liver was first described by Ishak in 1984 and has an incidence of 1/100,000. We present a 68-year-old female case referred to the pathology department with an initial diagnosis of cholangiocellular carcinoma and diagnosed with primary hepatic epithelioid hemangioendothelioma with review of the literature.

### Keywords

Liver; Sarcoma; Epithelioid Hemangioendothelioma

DOI: 10.4328/JCAM.2257

Received: 10.01.2014 Accepted: 02.03.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 355-7

Corresponding Author: Elif Ulker Akyıldız, Uludağ Üniversitesi Tip Fakültesi, Patoloji Anabilim Dalı, Gorukle, Bursa, Türkiye.

T: +90 2242950000 F: +90 2242950099 E-Mail: ulker33@yahoo.com

## Giriş

Karaciğerin primer sarkomları nadir görülmekte ve tüm karaciğer tümörlerinin yaklaşık %1'ini oluşturmaktadır. Bu sarkomların iki temel histolojik formu hepatik epitelioid hemanjioendotelyoma (HEH) ve anjiosarkomdur [1]. Epitelioid hemanjioendotelyoma, yumuşak doku ve organları tutan damar kaynaklı bir tümördür [2]. İlk kez 1982 yılında Weiss ve Enzinger tarafından yumuşak dokunun endotelyal orijinli tümörü olarak tarif edilmiştir [3]. Karaciğerin primer epitelioid hemanjioendotelyoması ise ilk kez 1984 yılında Ishak tarafından tariflenmiş bir tümör olup insidansı 1/100.000 olarak bildirilmektedir [4].

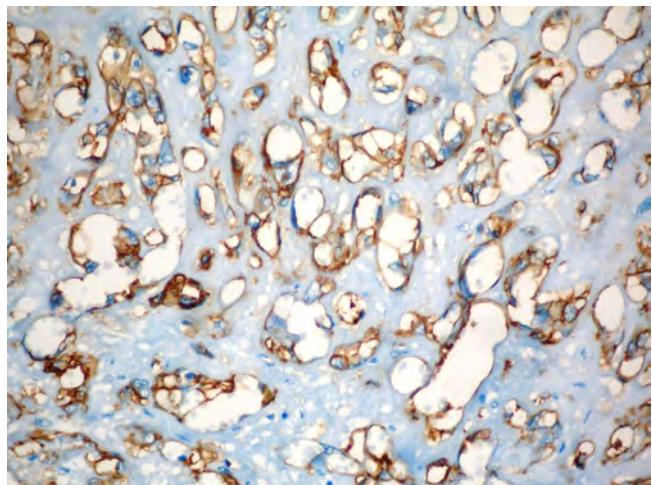
Bu çalışmada kolanjiosellüler karsinom ön tanısı ile patolojiye gönderilen ve primer HEH tanısı alan 68 yaşındaki kadın olgu literatür eşliğinde sunulmuştur.

## Olu Sunumu

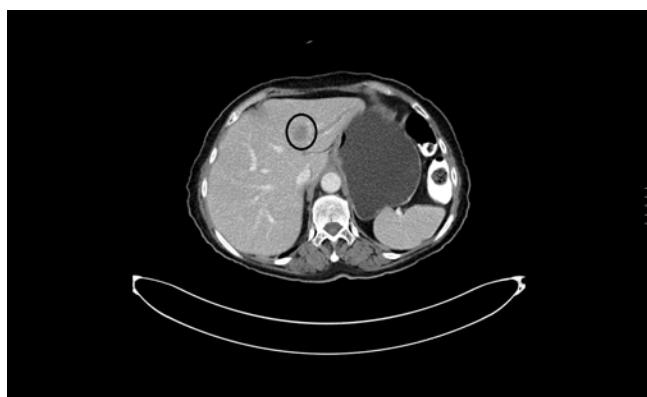
Beş yıldır diabetes mellitus tanısı ile izlenmekte olan 68 yaşındaki kadın hasta karın ağrısı şikayeti ile hastanemizin gastroenteroloji bölümünde başvurmuştur. Yapılan abdominopelvik bilgisayarlı tomografide karaciğer sol lob medio-lateral segment bileşkesinde (falsiform ligaman trasesinde) 22 mm çaplı hipodens yapıda solid kitle lezyonu saptanmıştır (Resim 1). Radyolo-

sinde 1.5x1.1 cm ölçüde gri beyaz renkte kalsifiye nodül görülmüştür. Kolesistektomi materyalinin incelemesinde makroskopik özellik saptanmamıştır.

Histopatolojik incelemede; segmentektomi ve metastaz kaydı ile gönderilen her iki dokuya ait mikroskopik kesitlerde kalsifiye, hyalinize sklerotik stroma içinde hafif pleomorfizm gösteren, intrasitoplazmik lümene sahip tümör hücrelerinin tek tek ya da küçük kapiller damarlar oluşturacak şekilde proliferatif olukları görülmüştür (Resim 2). Rezeksiyon materyallerinde cer-



Resim 2. Kalsifiye, hyalinize sklerotik stroma içinde intrasitoplazmik lümene sahip tümör hücreleri (Hematoxilin-Eosin, x200).



Resim 1. Abdominopelvik bilgisayarlı tomografide karaciğer sol lobda hipodens yapıda solid kitle lezyonu

jk ön tanı intrahepatik yerleşimli kolanjiosellüler karsinom olarak raporlanmıştır. Preoperatif CEA (karsinoembriyonik antijen) ve AFP (alfa fetoprotein) düzeyleri normal sınırlarda olup sırası ile 1.89 ng/ml ve 1.23 ng/ml ölçülmüştür. Kolanjiosellüler karsinom ön tanısı ile operasyona alınan hastaya intraoperatif ultrasonografi (USG) yapılmış, sol lobda önceden tespit edilen kitleye ek olarak segment 8'de metastaz olarak yorumlanan 2 cm çaplı bir kitle daha saptanmıştır. Bunun üzerine sol lateral segmentektomi yanısıra segment 8'den kitle eksizyonu ve kolesistektomi uygulanmıştır. Cerrahi sonrası günlük dren debisi ilk gün 225 cc, ikinci gün 200 cc olup kanamalıdır. Karvezide tablet 150/2.5 mg 1x1 oral, Novalgin ampul 4x1 g intravenöz ve Aldolan ampul 100 mg 2x1 intramusküler verilmiştir. 5. günde dren çekilerek hasta sorunsuz olarak taburcu edilmiştir. En son kontrolü operasyon sonrası 4. ayda yapılan hastada nüks ya da metastaz saptanmamıştır.

Patoloji Anabilim Dalı'na gönderilen 15x14x4 cm ölçüde karaciğer segmentektomi materyalinin makroskopik incelemesinde 1.7x1.5 cm ölçüde, kahverenkli, solid görünümülü tümöral lezyon saptanmıştır. Ayrıca yollanan segment 8'e ait 3x2.5x2 cm ölçüde karaciğer rezeksiyon materyalinin makroskopik incelemesi

rahi sınırlar intact olarak değerlendirilmiştir. Epitelioid karakterdeki hücresel morfoloji nedeniyle patolojik olarak özellikle sklerozan tipte primer kolanjokarsinoma, metastatik adenokarsinoma ekarte edilmeye çalışılmıştır. Damardan zengin yapısı, intrasitoplazmik lümen formasyonları nedeniyle de HEH başta olmak üzere sklerozan hemanjiooma ve anjiosarkoma ayırcı tanıya alınarak immünohistokimyasal inceleme yapılmıştır. Yapılan immünohistokimyasal boyamalarda tümör hücrelerinde CD31 pozitifliği saptanmıştır (Resim 2). CK7, CK20, TTF-1, Hepar, CA19.9 ve CK19 ile boyanma izlenmemiştir. Tümöral hücrelerde mitotik aktivite izlenmezken Ki 67 proliferasyon indeksi çok düşük bulunmuştur. Saptanan makroskopik, mikroskopik bulgular ve eşlik eden CD31 pozitifliği nedeni ile olgu HEH olarak tanı almıştır.

## Tartışma

Epitelioid hemanjioendotelyoma yumuşak doku, akciğer, karaciğer, kalp, beyin, tükrük bezi gibi birçok yerde gelişebilen bir tümördür [4]. Karaciğer kaynaklı hemanjioendotelyoma genellikle erişkin kadınlarda izlenen, nadir görülen düşük dereceli malign bir neoplazmdir [5]. Ortalama görülme yaşı 41.7 olup erkek/kadın oranını 2/3 olarak bildirilmektedir. HEH'in presentasyonu spesifik değildir, klinik belirtiler oldukça değişkendir. En sık izlenen şikayet ya da bulgular karın ağrısı (%48.6), hepatomegalı (%20.4), kilo kaybıdır (%15.6) [2,6]. Bizim olgumuz karın ağrısı şikayeti ile hastaneye başvurmuştur. HEH'in etiyolojisi bilinmemektedir ancak patogenezde karaciğere travma, oral kontraseptifler, vinil klorid, torotrast, primer bilier siroz, hepatit B virüsü üzerinde durulmaktadır [7,8].

HEH genellikle karaciğerin periferinde yerleşen multipl lezyonlar şeklinde kendini gösterir ancak bazen bir lobda yerleşmiş unifokal bir tümör şeklinde de saptanabilir. Her iki karaciğer lobun-

da multipl nodüller görüntüleme yöntemlerinde metastatik tümör nodülleri şeklinde yanlış tanı alılmaktadır. Tanıda görüntüleme yöntemleri önemli olmakla birlikte bulgular spesifik değildir [5]. Ultrasonografide en sık olarak multipl hipoekoik lezyonlar saptanır [9]. Bilgisayarlı tomografide genelde periferde yerleşmiş ve kapsül retraksiyonuna neden olan düşük dansiteli patern gösteren multipl kitleler şeklinde izlenir [6]. Karabiçak ve ark. preoperatif görüntüleme yöntemleri ile karaciğerde 5 adet kitle saptanmış ancak intraoperatif USG ile kitle sayısının 10 olduğunu tespit edilen bir olgu sunmuşlar ve tümöral kitlelerin sayısını saptamak için intraoperatif USG'nin daha güvenilir olduğunu vurgulamışlardır [10]. Bizim olgumuzda da intraoperatif USG kullanılmış ve ikinci bir tümör alanı saptanmıştır.

HEH'in kesin tanısının konması için morfolojik inceleme ve immünhistokimyasal çalışma gereklidir. Mikroskopik incelemede fibromiksoid stroma içinde epithelioid hücreler ve iğsi dendritik hücrelerden oluşan tümör izlenir [4,5]. Epithelioid hücreler, geniş eosinofilik sitoplazmali, veziküler çekirdeklı, intrasitoplazmik lümenlere sahip hücreler olup bu lümenlerin içinde eritrositlerin varlığı dikkati çeker. Bu hücreler vasküler endotelial kökenli olduğundan Faktör VIII ilişkili antijen ile veya diğer endotelial işaretleyiciler olan CD31, CD34 ile pozitif boyanma gösterirler. İğsi şekilli dendritik hücrelerde CD31 ve CD34 ile boyanma izlenmez [7]. Ultrastrüktürel incelemede bu hücrelerde iyi gelişmiş basal lamina, pinositik veziküler, Wieland-Palade cisimcikleri gösterilebilir [11]. Ayrıca intermedier hücre denen epithelioid ve dendritik hücreler arasında saçılım hücreler tarif edilmiştir [4,5]. Zamanla tümörün ortası sklerotik hale gelir. Tümörün periferinde tümör hücreleri sinüzoidleri, terminal hepatik venülleri, portal ven dallarını invaze edebilir [5,8].

HEH klinik gidişi tahmin edilemeyen bir tümördür. Yaşam süresi birkaç ay ile yıllar arasında değişmektedir. Yapılan çalışmalarda ilk haftalar içinde kaybedilen olgular yanında 27 yıldır hastalıksız yaşayan olgular da bildirilmiştir [2,5]. Ishak ve ark.nın sunduğu seride metastaz oranı %27 olarak bulunmasına rağmen diğer hepatik malignitelerle karşılaştırıldığında daha ilimli pronoza sahip olduğu düşünülmüştür [2]. Olgumuzun cerrahiden 4 ay sonra yapılan son kontrolünde nüks ya da metastaz saptanmamıştır.

HEH' de en çok kabul gören tedavi rezeksiyon ve transplantasyon olmakla birlikte çok nadir görülen ve klinik gidişi öngörelmemeyen bir tümör olduğu için henüz kabul edilen kesin bir tedavi protokolü yoktur, ayrıca öne sürülen tedavi metodlarının etkinliğini bilmek ya da birbirleri ile kıyaslayabilmek günümüzde mümkün değildir. Rezeksiyon ve transplantasyonun yanı sıra kemoterapi, radyoterapi, immünoterapi de uygulanabilmektedir. Lokalize lezyonlarda lobektomi kabul gören bir tedavi yöntemidir. Karaciğer rezeksiyonu sonuçlarının iyi olduğu 1 yıl yaşam oranının %100, 5 yıl yaşam oranının %75 olduğu bildirilmektedir [6]. Olgumuzda tümör segmentektomi ile çıkarılmış, ek tedavi verilmemiştir. Karaciğer transplantasyonu sonuçları da cesaret vericidir. Ellidokuz hastayı kapsayan bir çalışmada 5 ve 10 yıl yaşam oranı sırası ile %83 ve %74 olarak saptanmıştır [12]. Lenf noduna metastaz varlığı ya da uzak metastaz varlığı karaciğer transplantasyonu sonrası yaşam süresini azaltmamaktadır, bu nedenle tümör yayılmışsa bile karaciğer transplantasyonundan vazgeçilmemelidir [12,13]. Uraz ve ark. Yaygın karaciğer tutulumu yanı sıra akciğer, kemik metastazı saptanan olgular-

rında kadavradan karaciğer nakli yaparak 4 yıl sağkalım sağladıklarını bildirmiştir [14].

Patolojik incelemede anjiosarkom ayırcı tanıya girmektedir. Bu iki tümörün tedavi ve прогнозları farklıdır. Karaciğer transplantasyonu HEH' de tercih edilen bir tedavi metodu iken anjiosarkomda erken lokal nüks belliğinden önerilmemektedir, bu nedenle bu iki tümörün histopatolojik ayırımı önem kazanmaktadır. Her iki tümör de endotel hücre orijinlidir ancak anjiosarkomda HEH'den farklı olarak anastomozlaşan vasküler boşullar mevcuttur, hücrelerde intrasitoplazmik lümen oluşumu ya da hyalinize sklerotik zemin izlenmez [1,7,8,15].

Sonuç olarak hepatik epithelioid hemangioendothelioma çok nadir görülen, bu nedenle tedavisi ve прогнозu henüz tam olarak bilinmeyen bir tümördür. Literatürde yayınlanan olgu sayısı arttıkça tedavi metodları ve прогноз açısından daha net bilgilere sahip olmak mümkün olacaktır. Klinik ve radyolojik olarak primer ya da metastatik malignitelerle karmaşık olabilecek olduğundan patolojik incelemede akılda tutulması ve immünhistokimyasal metodlarla ayırcı tanısının yapılması önem arzetmektedir.

### Çıkar Çağışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çağışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### Kaynaklar

1. Bismuth B, Castel H, Boleslawski E, Buob D, Lambert M, Declercq N et al. Primary sarcoma of the liver and transplantation: a case study and literature review. *Rare Tumors* 2009; 28;1(2):e31. doi: 10.4081/rt.2009.e31.
2. Makhoul HR, Ishak KG, Goodman ZD. Epithelioid hemangioendothelioma of the liver: a clinicopathologic study of 137 cases. *Cancer* 1999;85(3):562-82.
3. Weiss SW, Enzinger FM. Epithelioid hemangioendothelioma: a vascular tumor often mistaken for a carcinoma. *Cancer*. 1982;50(5):970-81.
4. Ishak KG, Sesterhenn IA, Goodman ZD, Rabin L, Stromeyer FW. Epithelioid hemangioendothelioma of the liver: a clinicopathologic and follow-up study of 32 cases. *Hum Pathol* 1984;15(9):839-52.
5. Thin LW, Wong DD, De Boer BW, Ferguson JM, Adams L, Macquillan G et al. Hepatic epithelioid haemangioendothelioma: challenges in diagnosis and management. *Intern Med J* 2010;40(10):710-5.
6. Mehrabi A, Kashfi A, Fonouni H, Schemmer P, Schmied BM, Hallscheidt P et al. Primary malignant hepatic epithelioid hemangioendothelioma: a comprehensive review of the literature with emphasis on the surgical therapy. *Cancer* 2006;107(9):2108-21.
7. Min-Shu H, Po-Chin L, Yu-Chien K, Chia-Tung S. Hepatic Epithelioid Hemangioendothelioma in Taiwan: A Clinicopathologic Study of Six Cases in a Single Institution Over a 15-Year Period. *Journal of the Formosan Medical Association* 2010;109(3):219-27.
8. Ji ZF, Shen XZ, Zhang DY, Liu HY, Zhou Y, Guo MY et al. Hepatic epithelioid hemangioendothelioma: a report of six patients. *J Dig Dis* 2010;11(4):254-8.
9. Radin DR, Craig JR, Colletti PM, Ralls PW, Halls JM. Hepatic epithelioid hemangioendothelioma. *Radiology* 1988;169(1):145-8.
10. Karabiçak I, Yuruk S, Buyukakincan S, Kesicioglu T, Cinar H, Koca B. Epithelial hemangioendothelioma: A rare primary tumor of liver. *J.Exp.Clin.Med* 2013;30:111-3.
11. Lauffer JM, Zimmermann A, Krahnenbuhl L. Epithelioid hemangioendothelioma of the liver. A rare hepatic tumor. *Cancer* 1996;78(11):2318-27.
12. Lerut JP, Orlando G, Adam R, Schiavo M, Klempnauer J, Mirza D et al. The place of liver transplantation in the treatment of hepatic epithelioid hemangioendothelioma: report of the European liver transplant registry. *Ann Surg* 2007;246(6):949-57.
13. Madariaga JR, Marino IR, Karavias DD, Nalesnik MA, Doyle HR, Iwatsuki S et al. Long-term results after liver transplantation for primary hepatic epithelioid hemangioendothelioma. *Ann Surg Oncol* 1995;2(6):483-7.
14. Uraz JP, Yaprak O, Davangac M, Tokat Y. Hepatic epithelioid hemangioendothelioma: A rare indication for liver transplantation. *Turk J Surgery* 2012;28(1):53-6.
15. Kanel GC, Korula J, editors. *Atlas of liver pathology*. Philadelphia: Elsevier-Saunders; 2005. p. 249-321

### How to cite this article:

Akyıldız EÜ, Adım SB, Saraydaroglu Ö, Kaya E, Savcı G. A Rare Hepatic Tumor; Hepatic Epithelioid Hemangioendothelioma. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 355-7.



## Pulmonary Thromboembolism in Klinefelter's Syndrome Patient with Deficient of Protein C

### Protein C Eksikliği ile Birlikte olan Klinefelter Sendromunda Pulmoner Tromboemboli Olgusu

Klinefelter Sendromunda Pulmoner Tromboemboli Olgusu / Pulmonary Thromboembolism with Klinefelter's Syndrome

Mehmet Yiğit<sup>1</sup>, Kenan Ahmet Turkdogan<sup>1</sup>, Muhammed Emin Akkoyunlu<sup>2</sup>, Hazar Lisar<sup>1</sup>, Zeynep Erturk<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Department of Emergency Medicine, <sup>3</sup>Chest Diseases and Internal Medicine,  
Bezmialem Vakif University Medical School, İstanbul, Türkiye

#### Özet

Klinefelter sendromu (KS) bir veya daha fazla X kromozomu nedeniyle gözlenen yaygın bir genetik bozukluktur. KS böyle derin ven trombozu ve pulmoner emboli gibi venöz tromboembolik olaylar için artmış bir risk oluşturmaktadır. KS'ı nedeniyle hormonal dengesizlik ve bir veya daha fazla trombofilik faktörler hiperkoagulabilité eğilimi artmıştır. Bu nedenle, Klinefelter sendromunda venöz tromboemboli gibi bir tıbbi geçmişi olan hastalarda göğüs bilgisayarlı tomografi (BT) görüntülemesi ve en az altı aylık bir süre için oral antikoagulan tedavi gereklidir. Klinefelter sendromu tanısı alan 21 yaşındaki erkek hasta, 2 ay boyunca süren sol alt ekstremité ağrısı primer şikayetü ile hastanemiz acil servisine başvurdu. Derin ven trombozu (DVT) venöz doppler ultrasonya pulmoner tromboemboli ise toraks BT görüntüleriyle tespit edildi. Antikoagulan tedavisi sonrasında hastanın semptomları iyileşti. KS olan hastalar trombofiliye yatkınlık olduğu için mutlaka endokrinolojik testler veya görüntüleme yöntemleri ile akut trombus açısından değerlendirilmelidirler.

#### Anahtar Kelimeler

Klinefelter Sendromu; Protein C Eksikliği; Pulmoner Emboli

#### Abstract

Klinefelter syndrome (KS) is a common genetic disorder caused by one or more supernumerary X chromosomes. KS poses an increased risk for venous thromboembolic events such as deep venous thrombosis and pulmonary embolism. Klinefelter syndrome is prone to hypercoagulability due to hormonal imbalance and one or more inherited thrombophilic factors. Therefore, patients with KS having a medical history of venous thromboembolism require chest computed tomographic (CT) images and oral anticoagulation therapy for a period of at least six months. A 21 year old, male patient diagnosed with Klinefelter syndrome was presented to the emergency department of our hospital with primary complaints of left lower extremity pain lasting for 2 months. Deep venous thrombosis (DVT) was diagnosed via venous doppler ultrasound and pulmonary thromboembolism in his chest CT images. Following anticoagulation treatment, his symptoms recovered. An endocrinologic test should be ordered in patients having klinefelter syndrome with a medical or familial history of venous thromboembolism as well as additional assessment of innate or acquired thrombophilia should be made.

#### Keywords

Klinefelter Syndrome; Protein C Deficiency; Pulmonary Embolism

DOI: 10.4328/JCAM.2306

Received: 16.02.2014 Accepted: 05.03.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 358-60

Corresponding Author: Mehmet Yiğit, Bezmialem Vakif University Medical School, Department of Emergency Medicine, İstanbul, Türkiye.

GSM: +905057472163 E-Mail: yigitcil@gmail.com

## Introduction

Klinefelter syndrome is the most common congenital abnormality leading to primary hypogonadism, developing in approximately one per thousand (1:1000) live male births [1]. Variation of 48,XXYY occurs in 1 in between 18,000 to 50,000 male births [2]. This syndrome has a numerical chromosome abnormality in males, characterized by the presence of one or more extra X chromosomes [3]. KS is also associated with an increased risk for venous thromboembolic events (VTEs) such as deep venous thrombosis (DVT) and pulmonary embolism (PE). Recent studies report the prevalence of KS as 1 : 640 [4,5], and this makes KS the most prevalent aneuploidy in males and also the most common cause of male infertility. Despite the underlying mechanism remains unclear, it is believed to be related to a hypogonadism syndrome causing an increased synthesis and activity of plasminogen activator inhibitor-1 (PAI-1) and thus a decreased fibrinolytic activity [6]. It might be hypothesized that KS patients have also a higher risk to develop chronic thromboembolism and chronic thromboembolic pulmonary hypertension (CTEPH) [7]. Herein, we presented a young male patient with KS who also had venous thrombosis, pulmonary thromboembolism and, protein C deficiency.

## Case Report

A twenty one year-old male patient, diagnosed with KS (48,XXYY) during the sterility test, was presented to the emergency department of our hospital's with the primary complaints of left lower extremity pain which lasted 6 months prior to admission. His body temperature was 37.1°C. His blood pressure, pulse and respiration were 105/65 mm Hg, 115/minute and 22/minute, respectively at the time of admission. Heart sounds yielded rapid pulse and no murmur was observed. Crackles were heard in both lower lungs on auscultation of the chest. On the electrocardiography, ST-depression was observed in the V3, V4 and V5 areas but S1Q3T3 pattern was not observed. Increased right ventricular size and decreased right ventricular function were observed in the echocardiography. WBC was found as 9810/µL, Hb 15.7 g/dL and platelet 17700 K/mL on the peripheral blood test. Finding of inflammation with high sensitivity C-reactive protein 3.6 mg/dL (n:0-0.5) was revealed in an immunochemical serologic test. Blood urea nitrogen was found as 10.75 mg/dL, creatinine 1.0 mg/dL. The level of D-dimer was measured to be high at 8.98 ug FEU/ml (n:0-0.5). While the patient was on O2 mask 4 L, arterial blood gas analysis resulted in hypoxemia with pH 7.51, PCO2 26.3 mm Hg, PO2 71.4 mm Hg, HCO3 20.4 mmol/L and O2 saturation of 92%. Protein C of the patient 49% (n:70 – 140%), protrombin (FII) polymorphism mutant, protein S 124% (n: 60 – 130%) were determined in Table 1.

Table 1. Coagulation parameters and genetic analyses

Tests	Results	Normal Range
Protein C Aktivitesi	49%	70-140
Protein S Aktivitesi	124%	60-130
Faktör V leiden (G16917=R506Q)	Gecotype	Normal/Normal
Faktör II (Protrombin) G20210A	Mutant	Normal

A contrast enhanced chest computed tomography was ordered with a suspicion of possible pulmonary thromboembolism, which revealed multiple thromboembolism in the main, lobar,

segmental and subsegmental pulmonary arteries of both lungs (Fig. 1). Despite an O2 mask of 8 L O2 saturation of the patient



Figure 1. Pretreatment coronal computed tomography image of the patient.

dropped to 88-90%. On the persistent hypotension of 88/53 mm Hg was observed, despite hemodynamic support, thrombolytic therapy (Alteplase: 100 mg over 2 hours) was administered. Venous doppler ultrasound performed revealed acute - subacute term thrombosis in the left external iliac vein, superficial femoral vein, popliteal vein, common femoral vein, profound femoral vein, and chronic term thrombosis in the left trifurcation. The patient was administered anticoagulation therapy with low molecular weight heparin (enoxaparin: 60 mg subcutaneously every 12 hours for 7 days) and warfarin.

Having observed venous thromboembolism at a young age, a screening test for immunologic diseases was performed to set the differential diagnosis of antiphospholipid antibody syndrome. All of the following were found to be negative: the findings of complement levels (C3, C4), antibody to anti-double-stranded DNA antinuclear antibody (ANA), anticardiolipin antibody of immunoglobulin M and G, as well as lupus anticoagulant and venereal disease research laboratory outcome. The patient was put on warfarin for anticoagulation therapy after he was discharged.

## Discussion

There is an increased incidence of venous thromboembolism in patients having Klinefelter syndrome. In their series of 412 patients having Klinefelter syndrome, Campbell and Price reported an increased incidence of DVT and pulmonary embolism, observed over periods ranging from 1 to 20 years [6]. A possible explanation was the effects of androgens on hemostasis which was reported in two consecutive studies and then emphasized by Winkler in his review [8-10]. According to these findings, hypogonadism in males is related to reduced fibrinolytic activity through the increased levels of plasminogen activator inhibitor-1 (PAI-1), where plasma levels show an inverse relationship with testosterone concentrations. In our case, the diagnosis was established with venous doppler ultrasound for acute - subacute term thrombosis in the left external iliac vein, superficial femoral vein, common femoral vein, popliteal vein,

profound femoral vein, and chronic term thrombosis in the left trifurcation.

In conclusion, an endocrinologic test should be ordered in patients having klinefelter syndrome with a medical or familial history of venous thromboembolism as well as additional assessment of innate or acquired thrombophilia should be made. It seems that further studies on understanding of pathogenesis of venous thromboembolism in cases of KS are needed in the future. We consider that a long-term oral anticoagulation therapy is necessary for the treatment of thrombophilic conditions. We believe that whole body screening would decrease mortality in these patients if acute thrombosis is developed in these patients.

#### **Competing interests**

The authors declare that they have no competing interests.

#### **References**

1. Schwartz ID, Root AW. The Klinefelter syndrome of testicular dysgenesis. *Endocrinol Metab Clin North Am* 1991;20:153-163.
2. Linden, M.G; Bender, B.G; Robinson, A. (1995). Sex chromosome tetrasomy and pentasomy. *Pediatrics* 96 (4Pt1):672-682.
3. Bojesen A, Juul S, Gravholt CH. Prenatal and postnatal prevalence of Klinefelter syndrome: a national registry study. *J Clin Endocrinol Metab*. 2003;88:622-626.
4. Herlihy AS, Halliday JL, Cock ML, McLachlan RI. The prevalence and diagnosis rates of Klinefelter syndrome: an Australian comparison. *Medical Journal of Australia*. 2011;194:24-28.
5. Morris JK, Alberman E, Scott C, Jacobs P. Is the prevalence of Klinefelter syndrome increasing? *European Journal of Human Genetics*. 2008;16:163-170.
6. Byung-Soo Kang, Deok-Kyu Cho, Won-Jun Koh, Seung-Hoon Yoo, Ki-Bum Won, Yun-Hyeong Cho, et al. A case of severe pulmonary thromboembolism in a young male with Klinefelter syndrome. *Korean Circ J*. 2012 August; 42(8): 562-564
7. Bonderman D, Wilkens H, Wakounig S, H-J. Schafers HJ, Jansa P, Lindnere J et al. Risk factors for chronic thromboembolic pulmonary hypertension. *European Respiratory Journal*. 2009;33:325-331.
8. Bennet A, Sie' P, Caron P, Boneu B, Bazex J, Pontonnier F. Plasma fibrinolytic activity in a group of hypogonadic men. *Scand J Clin Lab Invest*. 1987;47:23-27.
9. Caron P, Bennet A, Camare R, Louvet JP, Boneu B, Sié P. Plasminogen activator inhibitor in plasma is related to testosterone in men. *Metabolism*. 1989;38:1010-1015.
10. Winkler UH. Effects of androgens on haemostasis. *Maturitas*. 1996;24:147-155.

#### **How to cite this article:**

Yigit M, Turkdogan KA, Akkoyunlu ME, Lisar H, Erturk Z. Pulmonary Thromboembolism in Klinefelter's Syndrome Patient with Deficient of Protein C. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 358-60.



## Intrauterine Contraceptive Device Migrated into the Urinary Bladder and a Review of the Literature

### Mesaneye Göç Etmiş İntrauterin Araç ve Literatürün Değerlendirilmesi

Mesanede İntrauterin Araç / Intrauterin Device at Bladder

Orhan Unal Zorba<sup>1</sup>, Hakkı Uzun<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Department of Urology, <sup>2</sup>Department of Urology,  
Recep Tayyip Erdoğan University, School of Medicine, Rize, Turkey

#### Özet

İntrauterin kontraseptif araçlar klinik pratikte 1963 yılından bu yana kullanılmaktadır. Ucuz ve verimli olmalarından dolayı intrauterin kontraseptif araçların gelişmekte olan ülkelerde geri dönüşümlü kontrasepsiyon için sıkılıkla kullanılmaktadır. İntrauterin kontraseptif aracın migrasyon insidansı %0,003 ile %0,87 arasında değişmektedir. İntrauterin kontraseptif aracın mesane, rektum, apendiks, kolon, periton, anterior abdominal duvar ve ovare migrasyonu bildirilmiştir. Sütür, stent ve iğne gibi yabancı cisimler mesane içerisinde taş oluşumu için odak oluşturabilmektedir. Bunlar gibi intrauterin kontraseptif araçlar da mesane içinde taş oluşumuna yol açabilmektedir. Burada intrauterin kontraseptif araç uygulanması sonrası 6. yilda suprapubik ağrı alt üriner sistem semptomları başlayan ve mesane içine migre olmuş intrauterin kontraseptif araç tespit edilen hastayı sunduk.

#### Anahtar Kelimeler

İntrauterin Kontraseptif Araç; Mesane Taşı; Göç

#### Abstract

Intrauterine contraceptive devices are being used in clinical practice since 1962. Due to their efficiency and low cost, intrauterine contraceptive devices are the most popular method of reversible contraception in developing countries. The incidence of migration of an intrauterine contraceptive device, and related uterine perforation ranges from 0.003% to 0.87%. Intrauterine contraceptive device may migrate into urinary bladder, appendix, rectum, colon, peritoneum, anterior abdominal wall or ovary. Foreign bodies like sutures, stents, and needles in the urinary bladder act as niduses for calculi formation. Intrauterine contraceptive device migrated into the bladder can also become a nidus for a stone formation. Herein we report about a case whose intrauterine contraceptive devices had migrated into the bladder, and presented with lower urinary tract symptoms and suprapubic discomfort 6 years after its insertion.

#### Keywords

Intrauterine Contraceptive Device; Bladder Stone; Migration

DOI: 10.4328/JCAM.2342

Received: 13.02.2014 Accepted: 05.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 361-3

Corresponding Author: Orhan Unal Zorba, Recep Tayyip Erdoğan Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Uroloji AD, Rize, Türkiye.  
E-Mail: zorbaunal@gmail.com

## Introduction

Intrauterine contraceptive devices (IUCDs) are being used in clinical practice since 1962. Due to their efficiency and low cost, IUCDs are the most popular method of reversible contraception in developing countries. The incidence of migration of an IUCD, and related uterine perforation ranges from 0.003% to 0.87% [1]. IUCD may migrate into urinary bladder, appendix, rectum, colon, peritoneum, anterior abdominal wall or ovary. To our knowledge there are about 76 cases in the world literature related to IUCDs that had migrated into the bladder.

Foreign bodies like sutures, stents, and needles in the urinary bladder act as niduses for calculi formation is an uncommon occurrence. IUCD migrated into the bladder can also become a nidus for a stone formation.

Herein we report about a case whose IUCD had migrated into the bladder, and presented with lower urinary tract symptoms (LUTS) and suprapubic discomfort 5 years after its insertion.

## Case Report

A 46-year-old woman presented to our clinic with LUTS and recurrent urinary tract infection. She had an IUCD inserted 11 years ago in a family planning centre. However, she became pregnant 2 years later with the in situ IUCD. She went on to have a normal vaginal delivery and the postpartum examination revealed no evidence of the IUCD. She was told that her IUCD had "fallen and she did not recognize that".

Her complaints had persisted for 6 years, and she had gone to different centers for these 6 years, where multiple antibiotics had been prescribed. A T- type IUCD on the right side of the pelvis was seen on plain abdominal film and an opaque stone measuring  $4 \times 3$  cm in size was seen on the IUCD. Computerized tomography (CT) scan showed that a calcified object seen on plain abdominal film was partly intravesical and partly in the wall of the urinary bladder (Figure 1).



Figure 1: CT scan of the pelvis showing one limb of the IUCD embedded in the wall of the bladder, and its stem with a stone on projecting into the vesical lumen

Endoscopic intervention was planned. Cystoscopy confirmed the findings of CT scan. It was observed that the encrusted IUCD was within the bladder. Grasper forceps was used to grab the embedded portion of the IUCD. IUCD was easily extracted from the bladder wall into the bladder lumen. The stone on the IUCD was successfully fragmented by pneumatic lithotripsy and the IUCD was removed as a whole unit. A Foley urinary indwelling catheter was inserted transurethrally, and it was removed on 7. postoperative day Postoperatively cystography was performed and no fistula was observed.

## Discussion

Diagnosis of bladder stones, particularly in women who became pregnant in the presence of an IUCD, recurrent urinary tract infections and LUTS should suggest the migration of IUCD into the bladder.

Since bladder stones are unusual in women, their presence should raise the suspicion of intravesical foreign bodies. IUCD can act as a nidus of crystallization for bladder stones. Although urinary tract infection is common in women, recurrent infection or any irritating urinary symptoms unresponsive to medical treatment should rise the suspicion of a foreign body in the urinary system, especially when patients have a history of pelvic surgery or IUCD insertion.

Based on our knowledge, and also review of current literature, symptoms like lower abdominal pain, dysuria, and frequency after IUCD insertion have not emerged earlier than 1 year after insertion of an IUCD. Accordingly, in our case symptoms became apparent 5 years after implantation of an IUCD and 2 years after birth. It is hard to answer the question whether iatrogenic uterine perforation or migration of the device could be implicated in these cases.

To elucidate the etiology of the extrauterine IUCD possibly related to iatrogenic perforation or migration of IUCD; we searched the literature to determine the temporal association between the placement of IUCD and unexpected pregnancy. While in one case pregnancy had been reported as early as 4 months after insertion of an IUCD [1], while in one case delivery had occurred 11 years after the IUCD insertion [2]. (Table 1) In our case delivery took place 3 years after insertion of IUCD.

Table 1. Initiation of the symptoms and delivery times after IUCD placement, NA: Not available

	Time interval between diagnosis and IUCD placement (years)	Delivery time after IUCD placement (years)	Syptoms after IUCD placement (years)
Al Awadi (1)	25	1	24
Chuang (3)	3	NA	2.5
Dar (4)	20	NA	NA
Istanbuloglu(5)	6	4	4.5
	14	1	NA
Mustafa (6)	12	2	12
Nouira(2)	10	NA	5
	5	NA	4.5
	9	3	6
	16	11	15
	6.5	NA	6
	4	NA	1

In cases reported in the literature, time interval between the onset of LUTS and the detection of an extrauterine IUCD often raise the question of whether iatrogenic uterine perforation or spontaneous migration of the device was responsible for extrauterine IUCD. Iatrogenic uterine perforation usually occurs at the time of IUCD insertion, but an IUCD may become stuck into the uterus and later be forced through the wall by spontaneous uterine contractions. Other mechanisms such as urinary bladder contractions or uterine atrophy may also play a significant role. Some case reports have indicated the initiation of symptoms

after menopause which strengthen the hypothesis of uterine atrophy as an etiologic factor [1,5]. In our case neither the patient was in menopause nor was uterine atrophy present, so uterine atrophy should not be the only culprit in the migration of IUD. Irrespective of iatrogenic uterine perforation or migration of the device, it is obvious that IUD eroded the bladder wall.

In our case the patient had become pregnant 2 years after insertion of an IUD. She had LUTS 5 years after the insertion IUD. Since 2 years had passed between insertion of and IUD, and conception, these findings suggest us that IUD spontaneously eroded the uterine wall rather than iatrogenic perforation. We believe that *in situ* IUD ensured contraception for 2 years, and after migration of the device conception had occurred.

Migration of IUD is more frequent in women who delivered babies with IUD in place. Shrinking of the uterus and thinning of the uterine wall in the postpartum and lactation periods because of hypoestrogenemia might lead to uterine perforation by IUD [5,6].

These different latency times raise the question whether the device was in the uterus or outside the uterine cavity during conception. It is impossible to make an exact determination because conception can occur while IUD is in the uterine cavity. In the literature, the majority of the cases IUD migration into bladder lumen occurred with copper-T devices [5-7]. There may be a design defect of copper-T IUDs that facilitates its migration into the bladder in addition to other possible factors [1]. There is considerable debate about what should be done with an asymptomatic IUD found in an extrauterine location. Some have argued that the device should be left alone and removed only if it causes symptoms. However, in our case if the patient had had a pelvic CT before the onset of urinary symptoms, then extrauterine or intravesical IUD could be seen. We can't conclusively determine the etiologic factors of extrauterine IUD such as iatrogenic perforation or migration. Besides, if the device migrated outside uterine cavity it can also migrate into adjacent tissues. We prefer surgical intervention rather than spending extra time on determining causative factors. Especially valid for copper-T IUDs.

IUD can be expelled without a patient's awareness. However when the IUD string cannot be seen during vaginal examination, or when the patient had pregnancy after IUD insertion, physician should suppose that IUD may be migrated until it is proved otherwise. There may be an IUD dislocation even in the presence of an IUD string visible through the cervical os.

The first diagnostic procedure to evaluate the status of an IUD is a KUB X-ray which shows whether the IUD is within the patient's body or not. X-ray films can also detect intravesical migration of an IUD with stone formation.

Sonography can display whether an IUD is properly placed inside the uterine cavity or not. However, sonography cannot precisely demonstrate the myometrial or bladder wall status, especially when the IUD has completely migrated outside of the uterus. Noncontrast CT will be sufficient, and there is no need for further invasive diagnostic methods such as intravenous pyelography, cystography, or hysteroscopy. CT can precisely depict the site of the dislocated IUD, anatomic association between the migrated IUD and organs involved, and the

extent of bladder injury.

Several methods for removal of IUD have been reported according to position and penetrance depth of the IUD in the bladder including cystoscopy, suprapubic cystotomy, open surgery and laparoscopy [1,3,4]. Endoscopic methods are efficient and safe for the treatment of such cases [2,5,6].

To conclude, IUD placement should be performed by experienced doctors or under their supervision. However, migration of IUD placed by gynecologists has been also reported [5]. The follow-up of IUD's with ultrasonography immediately after its insertion and then at regular intervals is mandatory. Initial approach to patient with intravesical IUD migration should be endoscopic.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Al-Awadi KA, Zaghloul AS, Kehinde EO. Symptomatic secondary vesical calculus formed on an intrauterine contraceptive device inserted 25 years previously. *Urol Int* 2011; 86(4): 483-486.
2. Nouira Y, Rakrouki S, Gargouri M, Fitouri Z and Horchani A. Intravesical migration of an intrauterine contraceptive device complicated by bladder stone: a report of six cases. *Int Urogynecol J* 2007; 18: 575-578.
3. Chuang YT, Yang WJ, Lee RK, Hwu YM. Laparoscopic removal of a migrated intrauterine contraceptive device with bladder penetration. *Taiwan J Obstet Gynecol* 2010; 49(4): 518-520.
4. Dar LA, Khan PS, Mushtaque M. Giant calculus formation after migration of an intrauterine device into the urinary bladder. *Int J Gyn Obst* 2011; 113(3): 243-245.
5. Istanbulluoglu MO, Ozcimen EE, Ozturk B, Uckuyu A, Cicek T, Gonen M: Bladder perforation related to intrauterine device-case report. *J Chin Med Assoc* 2008; 7: 207-209.
6. Mustafa M. Erosion of an Intrauterine Contraceptive Device through the Bladder Wall Causing Calculus: Management and Review of the Literature. *Urol Int* 2009; 82: 370-371.
7. Hoşcan MB, Koşar A, Gümüştاش U, Güney M. Intravesical migration of intrauterine device resulting in pregnancy. *Int J Urol* 2006; 13(3): 301-2.

### How to cite this article:

Zorba OU, Uzun H. Intrauterine Contraceptive Device Migrated into the Urinary Bladder and a Review of the Literature. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 361-3.



## Blood Patch Pleurodesis in the Treatment of Persistant Air Leakage in Langerhans Cell Histiocytosis; A Case Report

### Langerhans Hücreli Histiyoositozisde Persistan Hava Kaçağı Tedavisinde "Blood Patch" Plördezis; Bir Olgu Sunumu

Langerhans Hücreli Histiyoositozisde "Blood Patch" Plördezis / Blood Patch Pleurodesis in Langerhans Cell Histiocytosis

Ayşe Baççıoğlu<sup>1</sup>, Nesimi Günal<sup>2</sup>, Füsun Kalpaklıoğlu<sup>1</sup>, Koray Dural<sup>2</sup>, Berkant Özpolat<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Göğüs Hastalıkları AD, <sup>2</sup>Göğüs Cerrahisi AD, Kırıkkale Üniversitesi Tıp Fakültesi, Kırıkkale, Türkiye

#### Özet

Pulmoner langerhans hücreli histiyoositozis nadir görülen ve patogenezi kesin açıklanamamış reaktif bir hastalıktır. 16 yaşındaki erkek hasta son bir yıldır belirgin eforla artan nefes darlığı, kuru öksürük ve aralıklı göğüs ağrısı şikayetleri ile başvurdu. Solunum fonksiyon testi restriktif ve toraks yüksek rezolüsyonlu bilgisayarlı tomografide akciğer parankiminde çok sayıda, bir cm'den küçük hava kistleri ve sol hemitoraksta minimal pnömotoraks izlendi. Arter kan gazında hipoksemi ve ekokardiografide pulmoner hipertansiyon yoktu. Klinik ve tipik radyolojik görünümü ile pulmoner langerhans hücreli histiyoositozis tanısı ile uyumlu bulundu. Multisistem langerhans hücreli histiyoositozis varlığı detaylı öykü, tamamlayıcı fizik muayene ve temel radyolojik, kan ve idrar analizleri ile dışlandı. Tedavi olarak sigarayı bırakması ve takibi önerildi. Bir ay sonra tek taraflı total pnömotoraks gelişen hastanın tüp torakostomisinde uzamış hava kaçağı olması nedeniyle "blood patch" plördezisi başarıyla uygulandı. Bildiğimiz kadariyla bu olgu literatürde pulmoner langerhans hücreli histiyoositozis'de otolog kan ile plördezis yapılan ilk vaka özelliğini taşımaktadır.

#### Anahtar Kelimeler

Histiyoositozis; Kan Yama Plördezisi; Pnömotoraks

#### Abstract

Pulmonary langerhans cell histiocytosis is a rare reactive disorder with unclear pathogenesis. 16-year-old male patient complained about shortness of breath induced with exercise, non-productive cough, and intermittent chest pain for one year. Pulmonary function tests were in restrictive nature. There were multiple air cysts in lung parenchyma smaller than one cm and minimal pneumothorax on the left hemithorax in high resolution computed tomography of thorax. There was no hypoxemia in arterial blood gas analysis, and no pulmonary hypertension in echocardiography. Pulmonary langerhans cell histiocytosis was diagnosed with clinical features and typical radiographic appearance. Existence of multisystem langerhans cell histiocytosis was excluded thorough a detailed history, comprehensive physical examination, and baseline radiographic, blood and urine tests. He was recommended to quit smoking and close follow-up was planned. A tube thoracostomy was performed for left sided total pneumothorax one month later, and "blood patch" pleurodesis was done due to persistent air leakage with a successful outcome. As far as we know this is the first case report of pulmonary langerhans cell histiocytosis who was treated with autologous blood pleurodesis in the literature.

#### Keywords

Blood Patch Pleurodesis; Histiocytosis; Pneumothorax

DOI: 10.4328/JCAM.2347

Received: 15.02.2014 Accepted: 06.03.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 364-7

Corresponding Author: Ayşe Baççıoğlu, Kırıkkale Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Hastalıkları AD, 71000, Kırıkkale, Türkiye.

T: +90 318444071 E-Mail: aysebaccioglu@gmil.com

## Giriş

Pulmoner langerhans hücreli histiyositozis (PLHH), daha önceleri histiyositozis-x veya eozinofilik granüloma olarak adlandırılan akciğerlerin langerhans hücreleri olarak bilinen histiyositlerce infiltre olması sonucu gelişen bir interstiyel akciğer hastalığıdır [1]. Etyolojisi kesin bilinmemekle beraber hastaların %95'inden fazlası sigara öyküsü verir. Hastaların %85'inde sadece akciğerlerin tutulumu gözlenirken, multiorgan tutulumu daha nadirdir [2]. PLHH hastalarında pnömotoraks %16 oranında görülürken, bunların %63'ünde nüks görülmektedir [3]. Ciddi solunum yetmezliği ve pulmoner hipertansiyon gelişmesi durumunda akciğer transplantasyonu önerilmektedir [4].

Burada klinik özellikleri ve radyolojik görüntüleri ile PLHH tanısı konulan, pnömotoraks nedeniyle takılan göğüs tüpünden persistan hava kaçağı sonucu "blood patch" plörodezis uygulanan ve bu tedavi açısından literatürde bir benzerine rastlamadığımız olgu sunulmaktadır.

## Olgu Sunumu

16 yaşında erkek hasta kuru öksürük, aralıklı göğüs ağrısı ve son bir yıldır eforla artış gösteren nefes darlığı ile başvurdu. Fizik muayenesinde akciğer sesleri derinden gelmekteydi, ral-ronküs yoktu ve diğer sistem muayeneleri doğaldı. Özgeçmişinde 6 paket/yıl aktif sigara içicisi olduğu ve bebekliğinden bu yana evde sigara dumanına maruz kaldığı öğrenildi. Yılda en az iki kez olmak üzere üst solunum yolu enfeksiyonu hikayesi olan hastanın altı yaşında tonsillektomi operasyonu geçirdiği ancak şikayetlerinin geçmediği öğrenildi. Soygeçmişinde bilinen bir hasatalık yoktu.

Solunum fonksiyon testi FEV1=%56 (2,21 L), FVC=%56 (2,58 L), FEV1/FVC=%85,7 ve FEF25-75=%71 (3,51 L) olup restriktif paternedeydi. Hastanın çekilen PA akciğer grafisinde üst-orta zonda yaygın retikulo-mikronodüler görünüm saptandı. Yüksek rezolüsyonlu toraks bilgisayarlı tomografide (YRBT) akciğer parankiminde yaygın, çok sayıda ve bir cm'den küçük hava kistleri, ve bilateral minimal pnömotoraks izlendi (Şekil 1). Arteriyel kan gazı, tam kan sayımı, karaciğer ve böbrek fonksiyon testleri normal sınırlar içindeydi. Ekokardiyografide triküspit yetmezlik üzerinden ölçülen sistolik pulmoner arter basıncı normal sınırlardaydı (28 mmHg).

Sigara maruziyeti, genç erkek hasta olması, tekrarlayan göğüs ağrısı şikayeti ve tipik radyolojik görünümü ile PLHH tanısı ko-



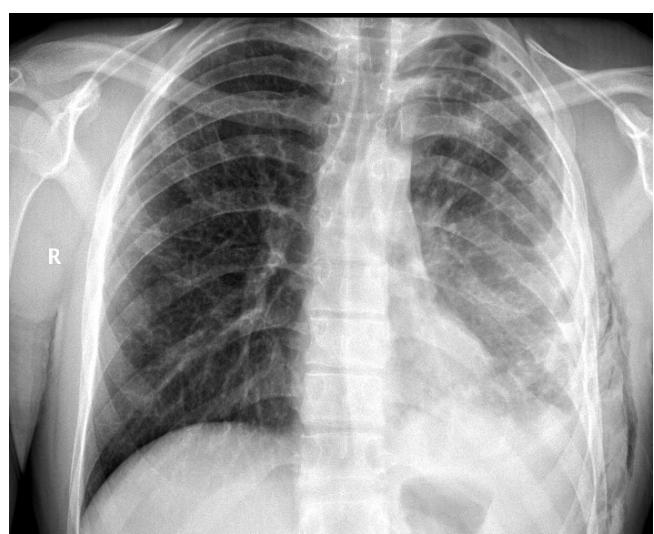
Şekil 1. Toraks YRBT'de akciğer parankiminde yaygın, çok sayıda ve bir cm'den küçük hava kistleri ve bilateral minimal pnömotoraks izlenmektedir.

nuldu. Multisistem langerhans hücreli histiyositozis varlığı detaylı öykü, tamamlayıcı fizik muayene ve temel radyolojik, kan ve idrar analizleri ile dışlandı. Tedavide başlangıç olarak sigarayı bırakması önerilirken inhaler steroid ve bronkodilatator de başlandı (beklametazon ve formoterol).

Hasta tanı konulmasından bir ay sonra- son dört gündür devam eden- batıcı tarzda göğüs ağrısı şikayeti ile başvurdu. PA akciğer grafisinde sol tarafta totale yakın pnömotoraks saptanması üzerine tüp torakostomi ve kapalı su altı drenajı uygulandı (Şekil 2a,b). İşlem sonrası PA akciğer grafisinde saptanan minimal pnömotoraks haricinde akciğer ekspanse oldu. Ancak göğüs tüpünden hava drenajının masif şekilde devam etmesi üzerine yatişının altıncı gününde plörodezis yapılmasına karar verildi. Özellikle kollabre akciğerlerde tercih edilen "blood patch" plörodezis yöntemi ile kendi venöz kanı, 2ml/kg dozunda antekübital bölgeden alınarak anterior hemitoraks ikinci interkostal aralık midklaviküler hattan takılan 8F kateter vasıtasyla anında plevral boşluğu verildi. Göğüs tüpü klempe edilmeksiz şişe hormumu göğüs seviyesinden 60 cm yukarı kaldırılarak bu şekilde iki saat kadar tutuldu ve sonrasında normal pozisyonuna bırakıldı. Takiplerinde hava drenajının azalması ancak kesilmemesi üzerine üç gün sonra aynı işlem aynı dozda tekrarlandı. İşlem sonrası hava drenajı tamamen kesildi ve akciğerde total ekspansasyon sağlandı (Şekil 3). 24. saatte göğüs tüpü çekilecek önerilerle taburcu edildi.



Şekil 2. PA akciğer grafide sol tarafta totale yakın pnömotoraks (a) ve sonrasında uygulanan tüp torakostomi ve kapalı su altı drenajı (b) görülmektedir.



Şekil 3. Otolog kan yama yöntemi ile plörodezis sonrası 24. saatte hava drenajının tamamen kesilmesi ile göğüs tüpü çekildikten sonra çekilen PA grafide akciğerde total ekspansasyon gözlenmiştir.

## Tartışma

PLHH yıllık insidansı 5.4/1.000.000 olup, 1-15 yaş arası çocukların ve 30-40 yaş arası yetişkinlerde sık görülmektedir [4]. Ülkemizde bu konuda yeterli veri olmamakla beraber akciğer tutulumu nedeniyle yayılan vakalara bakıldığından sayılarının çok az olduğu görülmektedir (Tablo 1) [5-10]. Etiyolojisi kesin bilinmemekle beraber hastaların %95'inden fazlasında sigara öyküsü vardır [2]. Bu olgu yaş, erkek cinsiyet ve sigara içim öyküsü ve tipik radyolojik bulgularla PLHH özelliklerini taşımaktaydı. Tütünde bulunan bir immunostimülatör olan 'tobakoglikoproteinin' ve akciğer nöroendokrin hücrelerinde üretilen 'bombesinbenzeri peptidin' PLHH gelişiminde etken olduğu düşünülmektedir. Ancak ilginç olarak, yayılan vakaları incelediğimizde sigara içim öyküsünün ortak özellik olmakla birlikte miktarının <10p/yıl gibi nispeten az bir düzeyde olduğunu gördük [5-10]. Bu durum sigaranın, tüketim miktarı ve süresinden bağımsız olarak etiyolojide rol oynayabileceğini düşündürmektedir.

Hastamızda olduğu gibi PLHH'de en sık semptomlar öksürük, göğüs ağrısı ve nefes darlığı ile kendinin gösterirken, çocukların da kemik ağrısı, gecikmiş puberte, bulantı, kilo kaybı gibi sistematik semptomlara yol açabilmektedir [1].

PLHH'de %15 oranında akciğer dışı tutulum görülebilirken en sık tutulan organlar kemik, deri, hipofiz bezi (Diabetes insipitus), karaciğer, lenf nodları ve iç kulaktır [4]. Bu nedenle kemik ağrısı, poliüri, polidipsi içeren detaylı anamnez ve mukozal tutulum açısından anüs-vajina muayenesi tanıda önemlidir. Tanısal tetkikler pansitopeni açısından hemogram ve/veya kemik iliği biyopsisi, karaciğer fonksiyon ve pihtlaşma testleri, serum al-

bümén düzeyi, hepatosplenomegalı açısından ultrasonografi, direkt kafa kemik grafisi (zimba ile delinmiş litik lezon görünümü) ve/veya kemik sintigrafisi (artmış aktivite), hipofiz bezi manyetik rezonans (MR) görüntülemesi ve toraks YRBT yapılabilir [4]. Hastamızın kemik grafisi ve hipofiz MR'ı normal sonuçlandı ve akciğer dışı organ tutulum semptomu bulunmaması nedeniyle tetkikler yukarıda belirtilen düzeyde sonlandırıldı.

PLHH tanısı tutulum olan organdan alınan biyopside histiyositlerin S-100 ve CD1a ile pozitif boyanması ve tipik Birbeck granülleri içeriklerinin gösterilmesi karakteristikdir [1]. Tanıda açık akciğer veya transbronşiyal biyopsi önerilirken, toraks YRBT ile de %84-90 oranında tanı doğru olarak konulmaktadır [4]. Vakamızda toraks YRBT'de yaygın bül görünümü saptanması nedeniyle akciğer biyopsisi uygun görülmeli. Ülkemizde PLHH vakalarında akciğer dışı tutulum da bildirilirken üç vakada benzer şekilde akciğer radyolojisi ile tanı konulmuştur [5-10].

Tedavide ilk basamak sigaranın bırakılmasıdır ve vakamızda olduğu gibi sigaraya devam edilmesi pnömotoraks gibi komplikasyonlarla progresyonu neden olabilmektedir. PLHH'de minör semptomlar varsa sadece izlem yapılabilirken, sigara bırakmaya rağmen şikayetlerde artış varsa immünsüpresif tedavi ve multisistem tutulumunda kemoterapi önerilmektedir [4]. Hastamızda sistemik tutulum olmadığı için kemoterapi verilmezken, akciğer şikayetleri şiddetli olmadığı için ve solunum yetmezliği ve kor pulmonale gelişmediği için sistemik kortikosteroid planlanmadı. Ancak efor dispnesi için inhaler kortikosteroid başlandı. PLHH'in komplikasyonları açısından solunum yetmezliğinde oksijen desenliği, broncodilatator ve sistemik kortikosteroid, kor pulmonale

Tablo 1. Ülkemizde yayılanmış PLHH olgularının özellikleri.

	Yaş, cinsiyet	Sigara	Semptomlar	Tanısal tetkikler	Sistem tutulumu	Tedavi
Arslanoğlu ve ark. (4)	29y, K	-	Topallama Polidipsi, Poliüri	Kemik grafisi, sintigrafisi Akciğer radyolojisi Kemik iliği biyopsisi Hipofiz MR	Kemik Kemik iliği Akciğer Hipofiz	Kemoterapi
Kalaç ve ark. (5)	21y, K	8p/yıl	Öksürük Nefes darlığı	Akciğer radyolojisi DLCO: %48 Bronkoskopi	Akciğer	Sigaranın kesilmesi Sistemik kortikosteroid
Okan ve ark. (6)	29y, E	-	Dispne Halsizlik	EKO	Akciğer Hipofiz	Sistemik kortikosteroid Metotreksat) Oksijen desteği Broncodilatör Kalsiyum antagonist Vasopressin Sildenafil ve iloprost
Çetinkaya ve ark. (7)	19y, E	1,5p/yıl	Öksürük Nefes darlığı Yan ağrısı	Akciğer radyolojisi Açık akciğer biyopsisi	Akciğer	Sigaranın kesilmesi Plördezis
	20y, E	5p/yıl	Öksürük Nefes darlığı	Akciğer radyolojisi Açık akciğer biyopsisi	Akciğer	Sigaranın kesilmesi Sistemik kortikosteroid
Gülhan ve ark. (8)	27y, E	18p/yıl	Öksürük Sirt ağrısı Nefes darlığı	Akciğer radyolojisi	Akciğer	Sigaranın kesilmesi Tedavisiz izlem
	23y, E	18p/yıl	Nefes darlığı Göğüs ağrısı	Akciğer radyolojisi EKO	Akciğer	Sigaranın kesilmesi Oksijen desteği Sistemik kortikosteroid Transplantasyon sırasında
	23y, E	5p/yıl	Göğüs ağrısı	Akciğer radyolojisi Açık akciğer biyopsisi	Akciğer	Sigaranın kesilmesi Sistemik kortikosteroid
	32y, E	10p/yıl	Öksürük	Akciğer radyolojisi	Akciğer	Sigaranın kesilmesi Tedavisiz izlem
Akçay ve ark. (9)	20y, E	1,5p/gün	Öksürük	Akciğer radyolojisi SFT USG Eksizyonel lenf nodu biyopsisi	Dalak Lenf nodları Akciğer	Sistemik kortikosteroid

tedavisinde diüretik, enfeksiyonlara karşı grip ve pnömoni aşılması, immünsüpresif tedavi alacaksa tüberküloz proflaksisi ve pnömotoraks tedavisinde tüp torakostomi planlanmalıdır [2,4]. PLHH'de pnömotoraks tedavisinde 'plörodezis' ileride gerekebilecek bir akciğer transplantasyonu işlemini zorlaştırsa da kontrendikasyon olarak kabul edilmemektedir [11]. Mendez ve ark.'ının PLHH tanılı 102 hastalık çalışmasında sadece cerrahi drenaj uygulananların %58'inde 'nüks pnömotoraks' gözlenirken, ayrıca plörodezis yapılanların hiçbirinde nüks bulunmamıştır [3]. Hastanın başvurusunda çekilen toraks BT'de minimal pnömotoraks olması daha önce farkında olmadan geçirdiğini ve reabsorbe olduğunu düşündürdü. Bu açıdan bu atak nüks olarak değerlendirildi. Totale yakın pnömotoraksı nedeniyle uygulanan tüp torakostomi sonrası hava kaçağının beş günden uzun sürmesi nedeniyle özellikle akciğer ekspansyonu iyi olmayan hastalara uygulanan, Özpolat ve ark.'nın deneyel ve klinik çalışmalarla etkisini kanıtladıları ve uzun yillardır başarılı şekilde uygulamakta oldukları "blood patch" plörodezis yapıldı [12,13]. Bu yöntemde hastanın venöz kanı alınmakta ve heparin eklenmeden göğüs tüpünden hızlı ve tek seferde plevra boşluğununa verilmektedir [12-14]. Bu hastada akciğerin apikal bölgesinden itibaren kanın tüm viseral plevra yüzeyine yayılması amacıyla ikinçi interkostal aralık midklaviküler aralıktan bir kateter yerleştirilmiş ve kan buradan verilerek daha önce takılmış olan göğüs tüpünden drene edilmiştir. Otolog kanın yama etkisi ile hava kaçağının olduğu kısmı kapanırken, uzun vadede inflamasyonu tetikleyerek fibrinöz plörite yol açmaktadır [13]. Bu yöntemin ucuz ve kolay temin edilir olmasının yanı sıra diğer sklerozan ajanlara göre yan etkisinin olmaması avantajı vardır [12]. Örneğin doksisiklin lokal doku toksisitesi ve hepatotoksik, tetrasiklin yanık yapıcı ve nefrotoksik, talk ise asbeste bağlı mezetelyoma ve ani solunum yetmezliği-ölüm riski taşımaktadır [3]. Ayrıca diğer sklerozan ajanların bronş ve trakeaya reflü olasılığına karşın otolog kan güvenli bir ajandır. Etkinliği %87,5 gibi yüksek düzeyde olmakla beraber PLHH'de kimyasal plörodezis ile nüks olabilemektedir [3,12].

Yapılan literatür araştırmasında otolog kan plörodezisi uygulanan PLHH vakasına rastlanmadığı için bu vaka literatürde bir ilk teşkil etmektedir. Sonuç olarak genç erkek, sigara içen ve tekrarlayan pnömotoraksı olan hastalarda, çok sayıda kistik lezyon varlığı ile PLHH düşünülmelidir. Ayrıca PLHH ve tekrarlayan spontan pnömotoraks durumunda otolog kan ile erken plörodezis etkili ve güvenilir bir yöntemdir.

### Çıkar Çakışıması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### Kaynaklar

1. Percinel S, Dizbay Sak S, Savas B. Pulmoner langerhans hücre histiyositozisi: klinikopatolojik özellikler. Solunum Hastalıkları 2007; 18: 174-80.
2. Devencioglu O, Tugrul Saribeyoglu E. Langerhans hücreli histiositoz. Çocuk Hematoloji Dergisi 2008; 2: 13-20.
3. Mendez JL, Nadrous HF, Vassallo R, Decker PA, Ryu JH. Pneumothorax in pulmonary langerhans cell histiocytosis. Chest 2004; 125: 1028-32.
4. Girschikofsky M, Arico M, Castillo D, Chu A, Doberauer C, Fichter J, et al. Management of adult patients with langerhans cell histiocytosis: recommendations from an expert panel on behalf of Euro-Histio-Net. Orphanet J Rare Diseases 2013; 8: 72.
5. Arslanoglu A, Arslan N. Langerhans hücreli histiyositozis (olgu sunumu) radyoloji ve sintigrafi bulguları. Med J Kocatepe 2007; 8: 61-3.
6. Kalaç N, Hasanoğlu HC, Yılmaz Aydin L, Demirağ F. Pulmoner langerhans hücreli histiyositozis (olgu sunumu). Solunum Hastalıkları 2003; 14: 146-9.
7. Okan T, Akdeniz B, Ozgun E, Goldeli O, Akkoclu A. Histiositoz x'e bağlı pulmoner hipertansiyon olgusunda iloprost ve oral sildenafilitrat etkileri. Türk Kardiyol Dern Arş 2002; 30: 722-5.
8. Çetinkaya E, Turna A, Gençoglu A, Ürer N, Altın S, Bedirhan MA, ve ark. Pulmoner langerhans hücreli histiositozis. Toraks Dergisi 2003; 4: 186-90.
9. Gülbah PY, Ekici A, Bulcun E, Ekici MS. Pulmoner langerhans hücreli histiositozis x: dört olgunun analizi. Respir Case Rep 2013; 2: 106-11.
10. Akçay Ş, Eyüpoglu FÖ, Arican A, Demirhan B. Pulse steroid tedavisinin langerhans hücreli histiositozis olgusundaki etkinliği. Solunum Hastalıkları 2000; 11: 419-25.
11. Kreider M, Kotloff RM. Selection of candidates for lung transplantation. Proceedings of ATS: 2009; 6: 20-27.
12. Ozpolat B, Gazyagci S, Gozubuyuk A, Ayva S, Atinkaya C. Autologous blood pleurodesis in rats to elucidate the amounts of blood required for reliable and reproducible results. J Surg Res 2010; 161: 228-32.
13. Ozpolat B. Autologous blood patch pleurodesis in the management of prolonged air leak. Thorac Cardiovasc Surg 2010; 58: 52-4.
14. Cobanoglu U, Sayir F, Sertogullarından B, Mergan D, Aydin I. Simultaneous bilateral spontaneous pneumothoraces: a retrospective analysis of 11 cases. J Clin Anal Med 2011; 2: 69-74.

### How to cite this article:

Baççıoğlu A, Günal N, Kalpaklioğlu F, Dural K, Özpolat B. Blood Patch Pleurodesis in the Treatment of Persistant Air Leakage in Langerhans Cell Histiocytosis; A Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 364-7.



## Hydrosyringomyelia in an Ankylosing Spondylitis Patient After Stabilization Surgery

### Ankilozan Spondilitli Hastada Stabilizasyon Cerrahisi Sonrası Gelişen Hidrosiringomyeli

Stabilizasyon Cerrahisi ve Hidrosiringomyeli / Hydrosyringomyelia and Stabilization Surgery

Deniz Öke Topcu<sup>1</sup>, Sevgi İkbali Afsar<sup>1</sup>, Adem Topcu<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Başkent Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Anabilim Dalı,

<sup>2</sup>Yenimahalle Devlet Hastanesi, Radyoloji Bölümü, Ankara, Türkiye

“10<sup>th</sup> Mediterranean Congress of Physical and Rehabilitation Medicine and 13<sup>th</sup> National Congress of the Serbian Association of Physical and Rehabilitation Medicine”,  
29 Eylül - 02 Ekim 2013, Budva'da poster olarak sunulmuştur.

#### Özet

Ankilozan spondilit (AS), başlıca aksiyel iskeleti etkileyen kronik, sistemik, otoimmün inflamatuvar bir hastalıktır. Ankilozan spondilit tedavisinde güncel yaklaşım lara rağmen, progresif seyri nedeniyle sıkılıkla torakolomber kifotik deformiteye neden olur. Bu deformitenin tedavisinde dekompreşyon, stabilizasyon ve omurgada füzyon gibi birçok cerrahi prosedür uygulanmaktadır. Hidromyeli ve sirinks; spinal kord santralindeki dilatasyonu tanımlamak için kullanılan bir terminolojidir. Bazı yazarlar spinal operasyon ile ilişkili siringomyeli gelişimi rapor etmişlerdir. Bizim sunduğumuz ankilozan spondilit ile takip edilen 48 yaşındaki kadın hastada stabilizasyon cerrahisi geçirdikten sonraki yedinci yılda siringomyeli oluşumu ve buna sekonder spinal kord yaralanması izlenmiştir. Sonuç olarak stabilizasyon cerrahisi yapılan hastalarda nadir bir komplikasyon olan siringomyeli gelişibileceğinin akılda tutulmalıdır.

#### Anahtar Kelimeler

Ankilozan Spondilit; Siringomyeli; Stabilizasyon Cerrahisi

#### Abstract

Ankylosing Spondylitis (AS) is a chronic, systemic, and autoimmune inflammatory disease which mainly affects axial skeleton. Despite current approaches in ankylosing spondylitis treatment, the disease frequently causes to thoracolumbar kyphotic deformity due to its progressive course. Many surgical procedures including decompression, stabilization and final fusion could be performed for the treatment of kyphotic deformity. Hydromyelia and syrinx are the terms used to define dilatation in central spinal cord. Some authors reported syringomyelia progression related to spinal operation. In our case; 48-year-old woman, who has been followed for ankylosing spondylitis; spinal cord injury secondary to syringomyelia was detected 7 years after stabilization surgery. Consequently, it should be kept in mind that syringomyelia, which is a rare complication, may develop in patients who underwent stabilization surgery.

#### Keywords

Ankylosing Spondylitis; Syringomyelia; Stabilization Surgery

DOI: 10.4328/JCAM.2348

Received: 20.02.2014 Accepted: 05.03.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 368-71

Corresponding Author: Deniz Öke Topcu, Başkent Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Fiziksel Tıp ve Rehabilitasyon Anabilim Dalı, Bahçelievler 06490 Ankara, Türkiye.

T: +90 3122126650 F: +90 3122157840 E-Mail: dr\_denizoke@hotmail.com

## Giriş

Spinal kordun kronik progresif bir hastalığı olan siringomyeli, patolojik olarak sıvı ihtiiva eden, longitudinal kavitasyonlarla karakterize, nadir görülen bir durumdur. Kaudal fossa anomalileri (chiari malformasyonları), tethered spinal kord, travma, araknoidit, spinal kord tümörü gibi primer problemlerden kaynaklanabilen bu durumun daha nadir olarak spinal kord cerrahisi sonrası da görülebildiği bazı yazarlarca rapor edilmiştir [1,2].

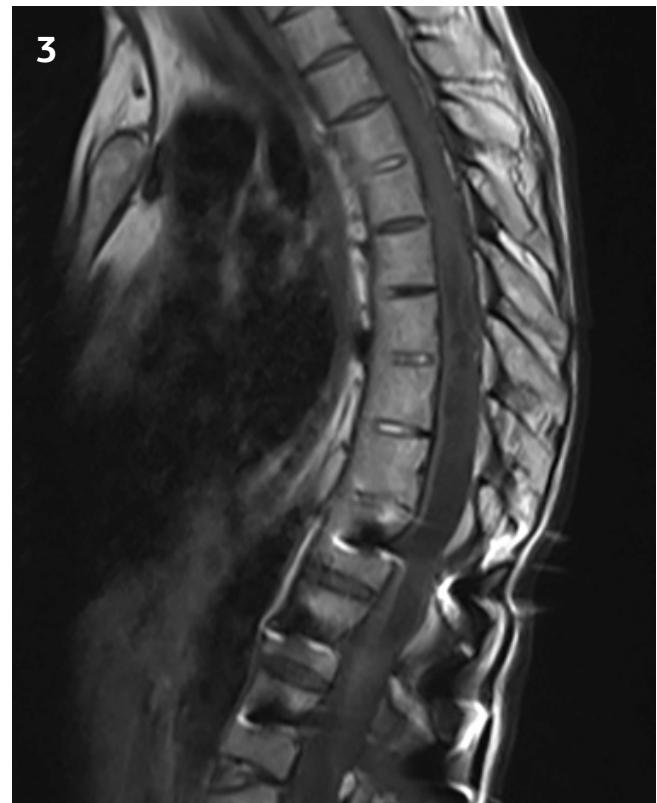
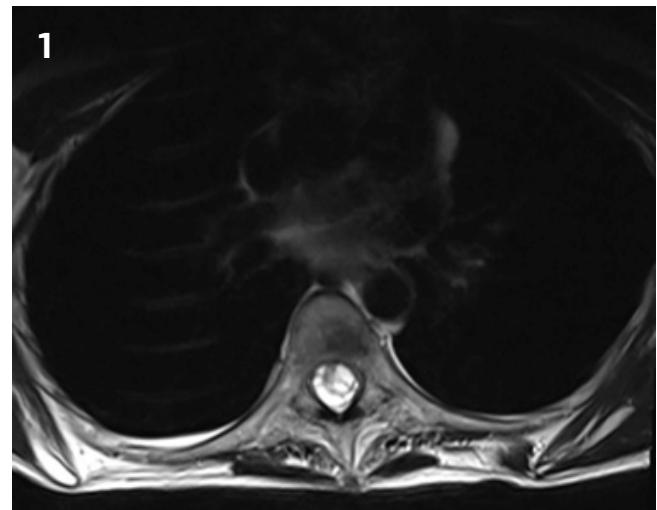
Ankilozan spondilit (AS), esas olarak genç erkeklerde görülen ve primer etkileri aksiyel iskelet üzerine olan, kronik sistemik inflamatuvar bir hastalıktır [3]. Omurga disk ve ligamanlarında progresif ossifikasiyona, faset eklemlerde ankiloza yol açarak omurganın elastisitesini azaltır, hareketlerini kısıtlar ve sonuca omurganın biyomekanik özellikleri değişir [4].

Bu yazında, ankilozan spondilite sekonder kifoz nedeniyle uygulanan torakolomber spinal cerrahi sonrası uzun dönemde paraparezi gelişerek etyolojisinde siringomyeli saptanan ve cerrahi tedavi sonrası rehabilitasyon programı uygulanan bir olgunun sunulması amaçlanmıştır.

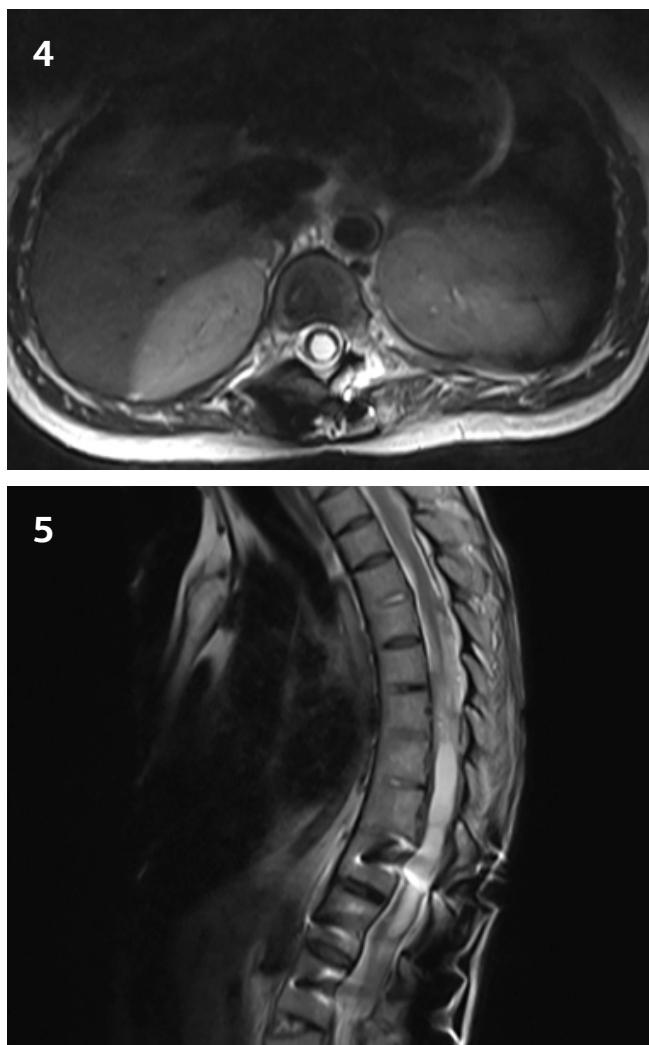
## Olu Sunumu

48 yaşında kadın hasta bacaklarda güçsüzlük ve ağrı şikayeti ile kliniğimize başvurdu. Kendisinden alınan bilgiye göre; yaklaşık 15 yıldır AS tanısı ile takip edildiği, 7 yıl önce kifoz nedeniyle stabilizasyon cerrahisi yapıldığı, yaklaşık 1.5 yıldır devam eden, belinden bacaklarına yayılan yanıcı tarzda ağrı ve uyuşma şikayeti olduğu öğrenildi. Medikal tedaviye rağmen şikayetlerinde artış olan hastanın çekilen torakolomber vertebral maniyetik rezonans görüntülemesinde (MRG); T8-T9 vertebra korpus seviyelerinde spinal kanalda T1AG'de hipointens, T2AG'de hiperintens, minimal periferal kontrast tutulumu gösteren, kordda minimal ekspansiyona neden olan kistik lezyon (intramedüller astrositom ile uyumlu) ve T10-L1 vertebra korpus seviyelerinde spinal kordda en geniş seviyede 1 cm genişlikte hidrosiringomyeli ile uyumlu alan saptanmış [Resim 1,2,3,4,5]. Hastaya T8-T9-T10 laminektomi, kitle eksizyonu, siringotomi ve duraplasti operasyonu yapılmış; eksize edilen materyalin patoloji sonucu fibro-osseöz lezyon ile uyumlu gelmiş. Operasyon sonrası hastanın sağ bacağında daha belirgin olan güçsüzlük, bacaklarla uyuşma ve yanıcı tarzda ağrı şikayeti devam etmiş. Hastanın özgeçmişinde AS dışında özellik yoktu. AS'ye yönelik başlanan antiinflamatuvar ve sulfasalazin tedavisini kendi isteği ile bıraktığı ve düzensiz olarak antiinflamatuvar ilaçlar kullandığı öğrenildi.

Fizik muayenesinde; kalça fleksiyonu ve diz ekstansiyonu sağda 5/5 solda 4/5, ayak bileği dorsifleksiyonu sağda 4/5 solda 3-/5, başparmak dorsifleksiyonu sağda 3/5 solda 2/5, ayak bileği plantar fleksiyonu sağda 3+/5 solda 3/5 kuvvetinde idi. Üst ekstremitelerde motor deficit saptanmadı. Yüzeyel duyu muayenesinde T10 dermatomu dahil normoestezik, distalinde hipoestezik olarak saptandı. S4-5 kısmi motor ve duyu fonksiyonu mevcuttu. Derin tendon refleksleri üst ekstremitelerde normoaktif, alt ekstremitelerde hipoaktif ve plantar yanıt bilateral lakin bulundu. Hastanın Schober ve modifiye Schober ölçümleri ayakta durma dengesi yeterli olmadılarından yapılamadı. Oksipit-duvar mesafesi 15 cm, göğüs genişliği 2 cm olarak ölçüldü. Tek kanedyen ile düz zeminde minimal yardımla kısa mesafe ambule olabiliyordu. İdrar ve gayta his ve kontrolü mevcut



Resim 1,2,3. T2 ağırlıklı aksiyel, sagittal ve T1 ağırlıklı kontrast sonrası sagittal görüntülerde spinal kordda T8-T9 seviyelerinde; T2 ağırlıklı sekanslarda hiperintens, kontrast sonrası T1 ağırlıklı sekanslarda minimal periferal kontrast tutulumu gösteren kistik lezyon izlenmektedir.



Resim 4,5. T2 ağırlıklı aksiyel ve sagital görüntülerde T10-L1 vertebra seviyelerinde hidrosiringomyeli izlenmektedir.

olan hastanın postvoiding rezidüsü saptanmadı.

Torakolomber vertebral grafide L5, L4, L2, L1, T12'de pedikülerden korpusa uzanım gösteren vidalar ve posteriorda sabitleyici plak görünümü, yaygın osteoporotik görünüm, vertebra korpuslarında kareleşme, anterior ve posteriorda köprüleşen sindesmofitler, vertebra korpus end platelerinde reaktif değişiklikler ve skleroz mevcuttu. Sakroiliak grafide bilateral sakroiliak eklemler ankiloze olarak değerlendirildi. Rutin biyokimyasal tetkikleri, eritrosit sedimentasyon hızı ve C-reaktif protein normal sınırlardaydı.

Hasta "American Spinal Cord Injury Association" (ASIA) bozukluk skalarına göre T10 AIS D kabul edilerek kliniğimizde rehabilitasyon programına alındı. Hastaya eklem hareket açıklığı egzersizleri, progresif dirençli egzersizler, postür egzersizleri, yürüme eğitimi egzersizleri, denge koordinasyon egzersizleri ve alt ekstremitelere nöropatik ağrı nedeniyle TENS ve pulmoner rehabilitasyondan oluşan tedavi programı uygulandı. Rehabilitasyon programı sonunda tek nokta baston ile düz zeminde bağımsız ambule hale gelen hastanın yürüme paterninde iyileşme ve yürüyüş mesafesinde artış sağlandı.

### Tartışma

AS'lı hastalarda ligaman kalsifikasyonu ve sindesmofit oluşumuna bağlı ortaya çıkan vertebral füzyon spinal kolonun elastisitesini azaltır, hareketlerini kısıtlar. En sık görülen spinal de-

formite, torakolomber kifoz deformitesidir. AS'lı hastaların büyük çoğunluğunda görülen bu deformite; mobilitede azalma ve solunum fonksiyonlarında bozulmaya neden olur [4]. Konservatif tedavinin başarısız kaldığı durumlarda, spinal kolonun sagittal balansını düzeltmek için cerrahi tedavi gündeme gelmektedir. Bu amaçla dekompreşyon, stabilizasyon ve omurgada füzyon gibi birçok cerrahi prosedür uygulanmaktadır. AS'lı hastalarda yapılan spinal cerrahilerde, diğer erişkin spinal cerrahilerle kıyaslandığında komplikasyon gelişme oranı daha yüksektir. Enfeksiyon, enstrümentasyonda başarısızlık, vasküler ve nörolojik komplikasyonların görülmesi nadir değildir [5]. Bizim vakamızda ise postoperatif kısa dönemde herhangi bir komplikasyon görülmemezken, operasyondan yedi yıl sonra siringomyeli saptanmıştır. Siringomyelinin en önemli klinik belirtisi ağrıdır. Alt ekstremiten güçsüzlüğü diğer yaygın semptomlardan biridir. MRG siringomyeli tanısında oldukça önemli bir yöntemdir [2]. Radyolojik tanıda intravenoz ve intratekal kontrastlı tomografi ve miyelografi gibi birçok modalite kullanılabilmesine rağmen MRG hala altın standarttır. Ancak radyolojik bulgular patognomonik değildir ve siringomyeli diğer patolojilerle karışabilir. Literatürde intramedüller tümörü taklit eden ve yapılan operasyon sonrası siringomyeli tanısı konulan birkaç vaka tanımlanmıştır [6]. Bizim vakamızda paraparezi gelişmesi üzerine değerlendirilmiş ve radyolojik olarak intramedüller tümör ön tanısı almıştır. Bu durumda tanıyı doğrulama ve tedavi amacıyla yapılan cerrahi girişim önem kazanmaktadır.

Yapılan bir çalışmada; spinal kord tümörü, travma, skolioz, servikal spondilotik myelopati ve tethered kord sendromu gibi nedenlerle dekompreşyon cerrahisi yapılan 181 hastanın 13'ünde postoperatif dönemde çekilen MRG'de siringomyeli saptanmıştır. Dekompreşyon cerrahisi uygulanan hastalarda spinal kordun ani olarak dekompreşyonu sonucu kord genişleyerek ve ödem, kist, nekroz, malezi zemininde siringomyeli gelişebileceği öne sürülmüştür [1]. Spinal kord progresif olarak komprese olursa uzun dönemde araknoid adezyon gelişerek subaraknoid mesafe obstrüksiyon oluşturabilir. Özellikle 4. ventrikül bloke olduğunda ani dekompreşyon, dejenerasyon, nekroz ve kord santralindeki alanın yumuşaması ile birlikte spinal kordda dilatasyona neden olabilir. Lezyon üzerindeki atım basıncı lezyonun vertikal olarak genişleyip siringomyeli gelişmesine katkıda bulunur [7]. AS ve spinal kord lezyonu birlikteligiinde tedaviyi zorlaştıran ve sonuçları etkileyen bir takım faktörler vardır. Azalmış aerobik kapasite ve bozulmuş pulmoner fonksiyonlar AS'lı hastalarda sık görülmekte ve hastanın genel durumunu belirgin olarak etkilemektedir. Ayrıca, mobilitenin azalması da genel durum bozukluğununa neden olmaktadır. AS'e ait diğer sistemik tutulumların olması ve yine hastalığın kendisine ait kas iskelet sistemi problemleri bu grup hastalarda tedavi sonuçlarını etkiler [8]. Bu nedenle AS ve spinal kord lezyonu birlikteligi olan hastalarda rehabilitasyon sürecinde tedavi programı hastaya uygun olarak planlanmalı, olası komplikasyonlar açısından yakın takip yapılmalı ve koruyucu önlemler alınmalıdır.

AS'lı hastalarda ağrı karakteri değiştiğinde ve yeni bulgular ortaya çıktığında etyolojinin araştırılması önemlidir. İleri dönemdeki AS'lı hastaların travmatik spinal kord lezyonu gelişimi açısından risk altında oldukları bilinmektedir. Özellikle vertebral cerrahi geçiren hastalarda siringomyeli gelişimi de akılda tutulmalı ve ayırcı tanıya dahil edilmelidir.

**Çıkar Çaklıması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çaklıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

**Kaynaklar**

1. Jiangang S. Syringomyelia after operation: diagnosis and its formational mechanism. *J of Medical Colleges of PLA* 2008;23:116-20
2. Rusbridge C, Greitz D, Iskandar BJ. Syringomyelia: current concepts in pathogenesis, diagnosis, and treatment. *J Vet Intern Med* 2006;20(3):469-79.
3. Hanedan MO, Parlar AI, Babaroglu S, Yay K, Altintas G. Cor triatriatum with ankylosing spondylitis: case report. *J Clin Anal Med* 2013; DOI: 10.4328/JCAM.167
4. Thumbikat P, Hariharan RP, Ravichandran G, McClelland MR, Mathew KM. Spinal cord injury in patients with ankylosing spondylitis: a 10-year review. *Spine* 2007;32:2989-95.
5. Sansur CA, Fu KM, Oskouian RJ Jr, Jagannathan J, Kuntz C 4th, Shaffrey CI. Surgical management of global sagittal deformity in ankylosing spondylitis. *Neurosurg Focus* 2008;24(1):E8
6. Abuzayed B, Dashti R, Erdinclar P, Ozlen F, Kafadar AM, Ciplak N. Terminal syringomyelia mimicking an intramedullary tumor: case report. *Turk Neurosurg* 2010;20(2):247-50
7. Rusbridge C, MacSweeney JE, Davies JV. Syringomyelia in cavalier King Charles spaniels. *J Am Anim Hosp Assoc* 2000;26:34-41
8. Jacobs WB, Fehlings MG. Ankylosing spondylitis and spinal cord injury: origin, incidence, management, and avoidance. *Neurosurg Focus* 2008;24(1):E12.

**How to cite this article:**

Topcu DÖ, Afsar Sı, Topcu A. Hydrosyringomyelia in an Ankylosing Spondylitis Patient After Stabilization Surgery. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 368-71.



## Multiple Lung Metastases From Parotid Adenoid Cystic Carcinoma with Respiratory Failure

### Parotis Adenoid Kistik Karsinomlu Olguda Multipl Akciğer Metastazı ve Solunum Yetmezliği

Parotid Adenoid Kistik Karsinoma Akciğer Metastazı / Lung Metastasis of Parotid Adenoid Cystic Carcinoma

Hülya Günbatar<sup>1</sup>, Selami Ekin<sup>1</sup>, Bunyamin Sertogullarından<sup>1</sup>, Alpaslan Yavuz<sup>2</sup>, Gülay Bulut<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Department of Pulmonary and Critical Care, <sup>2</sup>Department of Radiology, <sup>3</sup>Department of Pathology, Yuzuncu Yıl University Medical Faculty, Van, Turkey

#### Özet

Adenoid kistik karsinom (ACC) salgı bezlerinin, en yaygın malignitelerden biridir. Bu tükürik bezi karsinomlarının yaklaşık% 15% -25% oluşturmaktadır. Tipik olarak ACC yavaş büyüyen tümörlerdir, sık hematogen yolla uzak metastaz yapar. Solunum yetmezliği ve çoklu metastaz ile başvuran bir olguyu sunduk. 52 yaşında erkek, postoperatif radikal sağ parotis bezi rezeksiyonu ardından, kraniofasiyal radiotherapy uygulandı. 5 yıl içinde yıllık kranial tomografi ile bölgeler nüks bulgusu olmadan takip edildi. Fizik muayene normaldi. Kan gazi analizi orta derecede hipoxemi ile uyumlu idi. pH: 7,49 pCO<sub>2</sub>: 31,8 Po<sub>2</sub>: 38,9 HCO<sub>3</sub>: 24,1 sat O<sub>2</sub>: 79,1. Toraks CT 5 mm 'den 4 cm arasında değişen çok sayıda her iki akciğerde diffüz dağılan lezyonlar gösterdi. Lezyona BT eşliğinde ince igne aspirasyon biyopsisi yapıldı. Patolojik analiz adenoid kistik karsinom olarak raporlandı. Multiple akciğer metastazları solunum yetmezliğine neden olabilir ve hekimler tarafından sürekli dikkat gerektirir.

#### Anahtar Kelimeler

Adenoid Kistik Karsinom; Metastaz; Solunum Yetmezliği

#### Abstract

Adenoid cystic carcinoma (ACC) is one of the most common malignancy in secretory glands. It accounts for about 15% -25% of all malignant salivary gland carcinomas. Typically, ACC is slow growing tumors and develops distant metastasis via hematogenous. We report a case who presented with respiratory failure and multiple metastases. A 52-year-old male, underwent a radical craniofacial resection for a right parotid gland, followed by postoperative radiotherapy. He was followed-up with head CT scans for 5 years with no signs of locoregional recurrence. Physical examination was normal. Blood gases analyses showed moderate hypoxemia. pH: 7,49 pCO<sub>2</sub>: 31,8 Po<sub>2</sub>: 38,9 HCO<sub>3</sub>: 24,1 sat O<sub>2</sub>: 79,1. Thorax CT showed multiple lesions ranging in size from 5 mm to 4 cm distributed diffusely in both lungs. CT-guided fine-needle aspiration of the lung lesion was performed. Pathological analysis reported adenoid cystic carcinoma. Multiple pulmonary metastases may cause respiratory failure and requires constant vigilance by medical practitioners.

#### Keywords

Adenoid Cystic Carcinoma; Metastasis; Respiratory Failure

DOI: 10.4328/JCAM.2332

Received: 07.02.2014 Accepted: 11.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 372-4

Corresponding Author: Hülya Günbatar, Y.Y.U. D. Odabas Tip Merkezi, Kampüs, Van, Turkey.

T: +90 4322150470-6135 GSM: +905065118827 E-Mail: hulyagunbatar@hotmail.com

## Introduction

Adenoid cystic carcinoma (ACC) is one of the most common malignancy that arises in secretory glands, particularly the major and minor salivary glands [1]. It accounts for about 15% -25% of all malignant salivary gland carcinomas [1]. Pulmonary adenoid cystic carcinoma is a rare salivary gland-type malignant neoplasm of respiratory tract that is usually located in the central airways such as trachea and main bronchus. Adenoid cystic carcinoma arising from the peripheral lung is quite rare. [2] Typically, ACC is slow growing tumors with five-year survival rate, but it spreads into adjacent tissues and develops distant metastasis via haematogenous frequently to the lungs, bone, and soft tissues. [3] Most patients with ACC (80 %–90 %) die within 10–15 years after being diagnosed due to high rates of recurrence and distant metastasis [4]. Adenoid cystic carcinoma is unique for the reason that patients have been known to survive for 10 to 15 years despite pulmonary metastases [5]. Metastatic lesions of ACC may display radiological features indefinite from other pathologies. The correct diagnosis involves correlation of the clinical history, progress, radiological features and histological findings.

We report a case of a 52-year-old man who presented with respiratory failure and multiple metastases with a diagnosed adenoid cystic carcinoma resected parotid gland five years before.

## Case Report

A 52-year-old male, underwent a radical crano-facial resection for a right parotid gland adenoid cystic carcinoma, followed by postoperative radiotherapy. He was followed-up with annual head CT scans for 5 years with no signs of loco-regional recurrence.

He presented with gradually progressive shortness of breath on exertion and cough with mucoid expectoration for the last two months. He had no history of fever, chest pain, or haemoptysis. He had 30 packet-year tobacco use. There was no past history of, or history of contact with, tuberculosis.

Physical examination respiratory system was normal, head examination revealed no sign of local recurrence. His routine blood laboratory results also were within normal ranges. Blood gases analyses showed severe hypoxemia. pH; 7,49 pCO<sub>2</sub>; 31,8 Po<sub>2</sub>; 38,9 HCO<sub>3</sub>; 24,1 sat O<sub>2</sub>; 79,1. Multiple nodular shadows were detected on chest radiograph. CT of the thorax showed multiple lesions ranging in size from 5 mm to 4 cm distributed diffusely in both lungs (Figure 1) No mediastinal lymphadenopathy or pleural effusion was detected.

CT-guided fine-needle aspiration (FNA) of the lung lesion was performed. Pathological analysis showed multiple cystic structures with cribriform pattern on different sizes intervening hyaline stroma of the biopsy specimens reported adenoid cystic carcinoma. (Figure 2). In view of his past medical history of right parotid mass excision, the clinical picture was consistent with primary salivary gland ACC with multiple lung metastases. Patient have frequent emergency admission, he was evaluated with long term oxygen therapy, still being followed with oxygen therapy.

## Discussion

ACC is a rare malignant tumour, with a unique malignant profile

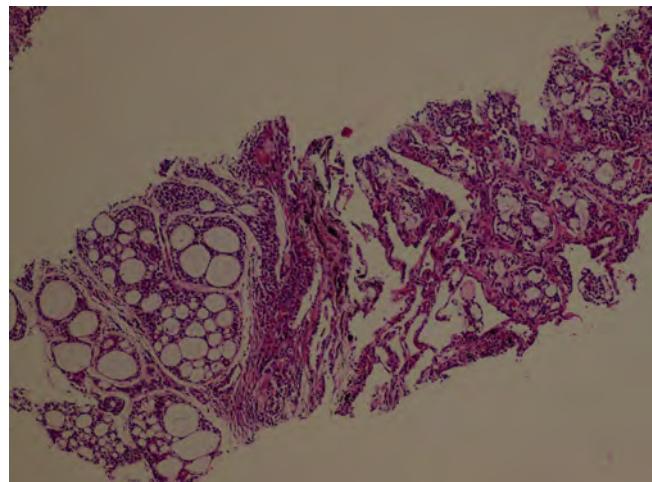


Figure 1. Multiple metastatic lesions ranging in size from 5 mm to 4 cm distributed diffusely in both lungs.

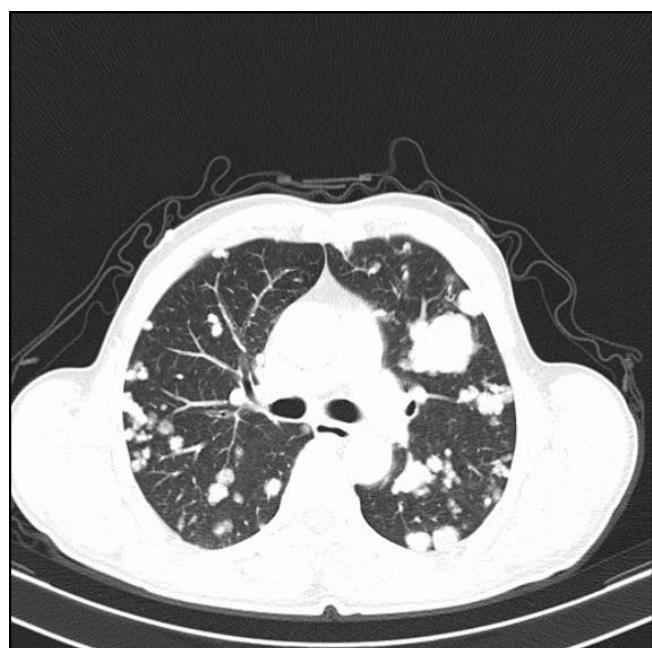


Figure 2. multiple cystic structures with cribriform pattern on different sizes intervening hyaline stroma

which accounts for approximately 10% of all salivary glands neoplasms.[6] Adenoid cystic carcinoma can arise in other sites, such as the trachea, lacrimal gland, breast, external auditory canal, cervix and vulva. Adenoid cystic carcinoma has a comparatively lazy course and rarely lymph node metastases but is well-known for its deposition for neurotropic spread, late local recurrences and distant metastatic spread. The three major histological patterns of growth pattern have been described: cribriform, tubular and solid. Combinations of the patterns are extensive. The prognosis of adenoid cystic carcinoma is greatly affected by the pattern of growth. The tubular pattern is reported to have the best prognosis while the solid is associated with a worse prognosis.[7] No solid or high-grade component was seen in the lung metastasis of this patient.

Distant metastasis was the most common type of treatment failure. In the study of Spiro 196 patients followed up for at least 10 years reported different form of treatment failure in 68%, distant metastasis in 38%, and lung involvement either alone or in addition to other sites in 34 percent. Disease-free interval varied from one month to as long as 19 years (me-

dian 36 months) [3]. Wal van der et all reported that 54.9% of their 51 patients had distant metastasis, the average time between the diagnosis of the primary lesion and the detection of metastasis was 36.8 months (median 28.5 months).[8] Sakes et al reported that disease repetition, either loco-regional or metastatic occurred up to 156 months after radiotherapy [9]. A generalization acknowledge in the treatment of cancer undertakes that a cure is present if there is liberty from disease for 5 years. The notion of cure in patients with ACC may be difficult to assess until the patient is disease free for 10 years or longer. Nevertheless there are reported cases recurrences of ACC of the submandibular gland 14and 20 years after the initial therapy.[10]

Late onset of pulmonary metastases from ACC is identified, and the metastatic lesions can remain relatively stable and asymptomatic for more than 10 years. [11] But in this patient progressive deterioration on the blood gases was viewed on the fifth year .

Conclusion It should be recognized that follow-up needs to be long term to identify all late recurrence and that complete resection does not always mean cure. ACC of the parotid gland may be indicate a life-long threat to some patients also may cause respiratory failure and requires constant vigilance by medical practitioners.

#### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

#### References

1. Ellington CL, Goodman M, Kono SA, Grist W, Wadsworth T, Chen AY et al. Adenoid cystic carcinoma of the head and neck: Incidence and survival trends based on 1973–2007 Surveillance, Epidemiology, and End Results data. *Cancer* 2012;118(18):4444-51
2. Yetim TD, Cokmert S, Bahadir F, Davran R, Erdem EŞ. Primary Pulmonary Adenoid Cystic Carcinoma Located at the end of the Terminal Bronchiolus: Case Report. *J Clin Anal Med* 2012;3(3): 361-3
3. Spiro RH, Huvos AG: Stage means more than grade in adenoid-cystic carcinoma. *Am J Surg* 1992; 164(6):623-8.
4. Persson M, Andren Y, Mark J, Horlings HM, Persson F, Stenman G. Recurrent fusion of MYB and NFIB transcription factor genes in carcinomas of the breast and head and neck. *Proc Natl Acad Sci U S A* 2009;106(44): 18740-4.
5. Wal van der JE, Snow GB, Waal van der I. Intraoral adenoid cystic carcinoma: the presence of perineural spread in relation to site, size, local extension, and metastatic spread in 22 cases. *Cancer* 1990;66(9):2031-3
6. Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D. Tumors of the salivary glands: WHO and TNM classification. In: Barnes L, Eveson JW, Reichart P, Sidransky D, editors *Pathology and Genetics: Head and Neck Tumours*. Lyon. IARC Press; 2005:pp210-1.
7. Fordice J, Kershaw C, El-Naggar A, Goepfert H. Adenoid cystic carcinoma of the head and neck: predictors of 110 morbidity and mortality. *Arch Otolaryngol Head Neck Surg* 1999;125(2):149-52.
8. Wal van der JE, Becking AG, Snow GB, Waal van der I. Distant metastasis of adenoid cystic carcinoma of the salivary glands and the value of diagnostic examinations during follow-up. *Head Neck* 2002;24(8):779-83.
9. Sakes AJ, Slevin NJ, Birzgalis AR, Gupta NK. Submandibular gland carcinoma: an audit of control and survival following adjuvant radiotherapy. *Oral Oncol* 1999;35(2):187-90
10. Kömürcü S, Özeti A, Safalı M et al. Delayed pulmonary metastasis of adenoid cystic carcinoma originated from external earway: case report. *Turkish J Cancer*. 2005;35(2):93-5.
11. Bradley PJ. Adenoid cystic carcinoma of the head and neck: a re-view. *Curr Opin Otolaringol Head Neck Surg* 2004;12(2):127-32.

#### How to cite this article:

Günbatır H, Ekin S, Sertogullarindan B, Yavuz A, Bulut G. Multiple Lung Metastases From Parotid Adenoid Cystic Carcinoma with Respiratory Failure. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 372-4.



## Intrascrotal Non-Testicular “Ancient” Schwannoma: A Rare Case Report

### Nadir Bir Olgu Sunumu: Intraskrotal Non-Testiküler “Ancient” Schwannoma

İntraskrotal Non-Testiküler “Ancient” Schwannoma / Intrascrotal Non-Testicular “Ancient” Schwannoma

Fatma Uysal<sup>1</sup>, Murat Tolga Gülpınar<sup>2</sup>, Gürhan Adam<sup>1</sup>, Mustafa Reşorlu<sup>1</sup>, Nilüfer Aylanç<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Radiology, <sup>2</sup>Department of Urology, Çanakkale Onsekiz Mart University, Çanakkale, Turkey

#### Özet

Vücutun herhangi bir bölgesinde oluşabilen Schwannomlar skrotumda çok nadir görülürler. Schwannomalar Schwann hücrelerinden kaynaklanan tümörlerdir ve teorik olarak herhangi bir siniri etkileyebilirler. Genital bölgenin zengin innervasyonunun olmasına rağmen, bu tümörlerin skrotumda görülmesi yaygın değildir. 66 yaşındaki erkek olgu son 1 yıldır ağrısız skrotal şişlik öyküsü ile başvurdu. Skrotal ultrasonografi ve manyetik rezonans görüntülemede orta-skrotal bölgede intraskrotal ve ekstratestiküler kitle saptandı. Cerrahi eksizyon yapıldı ve histoloji skrotumda ancient schwannoma ile uyumluydu. Bu sunumunda skrotal ancient schwannoma olgusu literatürle birlikte incelenmiştir.

#### Anahtar Kelimeler

Schwannoma; İntraskrotal; Ultrasonografi; Manyetik Rezonans Görüntüleme

#### Abstract

Schwannomas, which may occur in any region of the body, is very rare in the scrotum. Schwannomas are tumors that originate from Schwann cells and, theoretically, could affect any nerve. In spite of the rich innervation of the genital area, these kinds of tumors are not common in the scrotum. A 66 year old man presented with a 1-year history of painless scrotal swelling. Scrotal ultrasonography and magnetic resonance imaging revealed intrascrotal and extratesticular mass in the mid-scrotal region. Surgical excision was undertaken and histology was an ancient schwannoma of the scrotum. We report one case of ancient schwannomas of the scrotum with a review of the literature.

#### Keywords

Schwannoma; Intrascrotal; Ultrasonography; Magnetic Resonans Imaging

DOI: 10.4328/JCAM.2331

Received: 06.02.2014 Accepted: 16.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 375-7

Corresponding Author: Fatma Uysal, Çanakkale Onsekiz Mart University, Department of Radiology, Çanakkale, Turkey.

T: +90 2862635950 E-Mail: afatmauysal@gmail.com

## Giriş

Schwannomların "Ancient" varyantı kapsüllü benign sinir kılıfı neoplazmlarının nadir bir alt tipidir [1]. Bu sunumda nadir görülen intraskrotal ekstratestiküler patoloji olan ancient schwannom olgusunun ultrasonografi (US) ve manyetik rezonans görüntüleme (MRG) görüntülerinin sunulması amaçlanmıştır.

## Olgu Sunumu

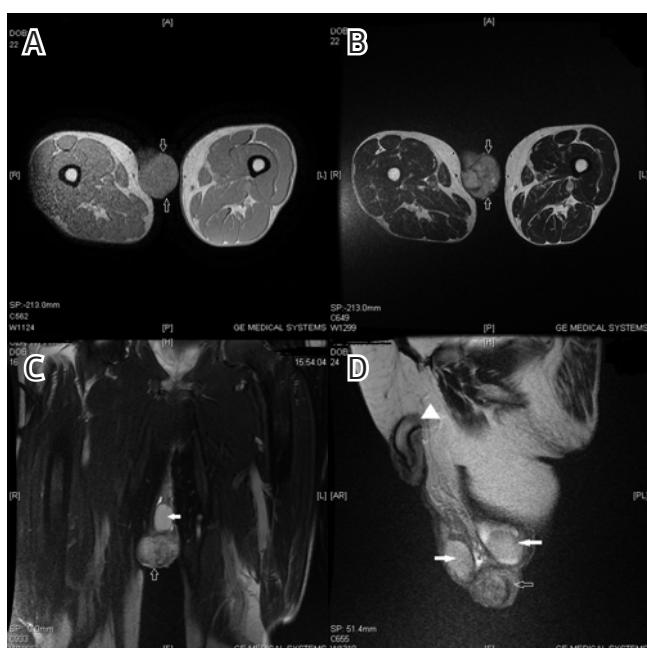
Altmışaltı yaşında hasta skrotumda son 1 yılda yavaş büyüyen ağrısız şişlik şikayeti ile başvurdu. Laboratuar tetkiklerinde testis tümör belirteçleri normal sınırlarda bulundu. Fizik muayenesinde inferior-orta skrotal bölgede yaklaşık 4x5 cm boyutlarında, testislerden ayrı olarak palpe edilen sert kitle saptandı. Öz-geçmişte önemli bir özellik mevcut değildi.

US'da (Resim 1) skrotum orta hatta ekstratestiküler yerleşim-



Resim 1. Ultrasonografi görüntüsü.B mod ultrasonografi; orta skrotal bölgede yerleşen intra-skrotal ve ekstra-testiküler heterojen kitle lezyonu saptanmıştır(A). Doppler ultrasonografi; hipervasküler kitle lezyonu mevcuttur(B).

li, 40x55 mm boyutta, testis dokusuna göre hafif hipoekoik, heterojen iç yapısında, düzgün konturlu solid kitle lezyonu saptandı. Doppler ultrasonografide lezyon hipervasküler yapıdaydı. Hidrosel saptanmadı. Her iki testis normal sonografik görünüm ve boyutta idi. Eşlik eden sağ inguinal herni mevcut iken başkaca ek patolojik bulgu saptanmadı. Yapılan MRG tetkikinde (Resim 2) ekstratestiküler yerleşimli, T1 ve T2 ağırlıklı sekanslarda tes-



Resim 2. Manyetik rezonans görüntüsü. T 1 ağırlıklı axial(A), T 2 ağırlıklı axial(B), T 2 ağırlıklı FS koronal(C), T 2 ağırlıklı sagittal görüntülerde; normal görünümde testisler (iç dolu ok), orta skrotal bölgede yerleşen intra-skrotal ve ekstra-testiküler kitle lezyonu (iç boş ok), inguinal herni (ok başı) izlenmektedir(D).

tis dokusuna göre düşük intensitede, heterojen yapıda, testis ve çevre yapılarında invazyon bulgusu görülmeyen, düzgün ve keskin

sınırlı, solid kitle lezyonu izlendi.

Kitle total olarak eksize edildi. Histopatolojik incelemede ince-ilenen kesitlerde iğsi hücrelerden oluşan neoplastik lezyon görülmekte, Verocay body tarzı yapılar, stromal fibrozis, yaygın ple-omorfikizar, iri nükleuslar görülrken belirgin mitotik aktivite saptanmadı. İmmühistokimyasal analizlerde S100 ve Desmin pozitif olarak bulundu. Histopatolojik özellikler Ancient schwannoma ile uyumlu olarak değerlendirildi. Testiküler invazyon sap-tanmadı.

## Tartışma

Nörojenik tümörler, nöral "crestten" köken alan hücrelerden gelişirler ve sinir dokusunun bulunduğu her yerde görülebilirler [1]. Schwannomalar, sinir kılıfındaki perinöral hücrelerin proliferasyonundan kaynaklanan, en sık rastlanılan nörojenik tümörlerdir. Sinir kılıfının schwann hücrelerden türemiş kapsüllü benign neoplazmadır. Schwannomların kesin insidansı bilinmemekle birlikte oldukça nadir görülmektedir. Schwannomalar tüm yaş gruplarında görülmekle birlikte en sık ilk dört dekatta görülür[2]. En sık baş-boyun bölgesinde kutenöz sinirleri ile otonom sinirler ve alt-üst ekstremitelerin fleksör yüzlerinde görülürler. İntrato-tasik[3] ve retroperitoneal [4] bölgede de yerleşebilirler.

Skrotal schwannomalar literatürde nadir olarak tarif edilmişdir [5,6,7], ancak, skrotal bölgede ancient varyantı ile ilgili az sayıda yayın bulunmaktadır [1,8].

Literatürde intraskrotal- ekstratestiküler multiple schwannom olgu sunumları da mevcuttur[8]. Ancak bizim olgumuzda tek kitle lezyonu saptandı.

Erkek genital schwannomlarının klinik ve radyolojik bulguları nonspesifik olup lezyon diğer solid tümörlerle karıştırılabilir. Bu tümörler büyük boyuta ulaşıp komşu yapılara bası etkisine neden olarak ağrı, disüri, üriner retansiyon gibi sekonder semp-tomlara neden oluncaya kadar genellikle asemptomatiktirler. Hastalarda en sık görülen bulgu ağrısız genital kitledir[9]. Bizim olgumuzda da bası bulgusu olmaksızın ele gelen kitle şikayeti mevcuttu.

Schwannomaların tanısı oldukça zordur. Radyolojik bulgular sıkılıkla nonspesifiktir.

Ultrasonografi lezyonun intratestiküler veya ekstratestiküler olup olmadığını belirlemeye hızlı ve doğru sonuç vermektedir. US ile solid ve kistik tümörler ayırt edilebilir. Ekstratestiküler ve kistik kitlelerde spesifik tanı (hidrosel, epididim kisti, varikosel) sıkılıkla konabilir ve lezyonun benign olduğu kanısına varyabilir. Solid ekstratestiküler kitlelerin sonografik özellikleri ve Doppler US bulguları ile tanısı kistik lezyonlara göre daha so-runludur [10].

Bilgisayarlı tomografi tetkiki uzak yayılımını belirlemeye yardımcı olabilir.

Oliver ve arkadaşlarının çalışmasında MRG' nin skrotal lezyonların saptanması ve lokalizasyonun tam olarak belirlenmesinde güvenilir olduğu gösterilmiştir. Ayrıca MRG ile kistik- solid, yağ ve fibrozis gibi çeşitli lezyon tipleri karakterize edilebilir.

Intratestiküler ve ekstratestiküler hastalıklarının ayrılmada MRG'nin yüksek tanısal doğruluk gösterdiği bulunmuştur. Skrotal lezyonların karakterizasyonunda MRG bulguları cerrahi girişim sıklığında bir azalma sağlayarak maliyetleri azaltabilir[11]. Asıl tedavi cerrahi ile total eksizyondur. Büyük, benign, tam ola-rak eksize edilemeyen lezyonlarda nüks olabilmesine rağmen

malign değişim nadirdir [7]. Bu hastalarda uzun süreli takip gereklidir.

Sonuç olarak, skrotal schwannomlar, nadir görülen oldukça iyi прогнозlu benign tümörlerdir. Radyolojik görüntüleme yöntemleri ile kitle lezyonu görüntülenebilir sadece spesifik bir görünümü yoktur. Tedavisi tümörün tamamen çıkartılmasıdır.

#### **Çıkar Çağışması ve Finansman Beyani**

Bu çalışmada çıkar çağışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Chan PT, Tripathi S, Low SE, Robinson LQ. Case report- ancient schwannoma of the scrotum. 2007;7:1.
2. Rosai J. Ackerman's surgical pathology. Mosby 8th edition 1995; 2:2264-66.
3. Yazicioglu A, Yekeler E, Ozaydin E, Karaoglanoglu N. Intrathoracic Schwannoma Presented with Hemothorax. *J Clin Anal Med* 2013; DOI: 10.4328/JCAM.1695.
4. Budak S, Yilmaz M, Aydemir H, Kose O, Dilek FH, Adsan Ö. Akut Üriner Retansiyonun Nadir Bir Nedeni: Retroperitoneal Ganglionöroma ve Eş Zamanlı Görülen Mediastinal Schwannoma. *J Clin Anal Med* 2013; DOI: 10.4328/JCAM.2080.
5. Matsui F, Kobori Y, Takashima H, Amano T, Takemae K. A case of intrascrotal schwannoma. *Hinyokika Kiyo* 2002;48(12):749-51.
6. Zarate RE, Fernandez GI, Lujan GM, Ortega MP, Berenguer SA. Schwannoma of the scrotum: report of case and review of the literature. *Actas Urol Esp* 1997;21(10):1012-3.
7. Safak M, Baltaci S, Ozer G, Turkolmez K, Uluglu O. Long-term outcome of a patient with intrascrotal extratesticular malignant schwannoma. *Urol Int* 1998;60(3):202-4.
8. Mahesh UK, Yelikar BR, Pande P, Patil M. A rare case of ancient schwannoma of scrotum. *International Journal of Biomedical and Advance Research*. 2012;3(8):660-2.
9. Kim YJ, Kim SD, Huh JS. Intrascrotal and extratesticular multiple schwannoma. *World J Mens Health* 2013;31(2):179-81.
10. Dell'atti L. Ultrasound diagnosis of unusual extratesticular mass: case report and review of the literature. *Arch Ital Urol Androl* 2013;85(1):41-3.
11. Mohrs OK, Thoms H, Egner T, Brunier A, Eiers M, Kauczor HU, et al. MRI of patients with suspected scrotal or testicular lesions: diagnostic value in daily practice. *AJR Am J Roentgenol* 2012;199(3):609-15.

#### **How to cite this article:**

Uysal F, Gülpınar MT, Adam G, Reşorlu M, Aylanç N. Intrascrotal Non-Testicular "Ancient" Schwannoma: A Rare Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 375-7.



## Prophylactic Mastectomy: Case Report

### Profilaktik Mastektomi: Olgu Sunumu

Profilaktik Mastektomi / Prophylactic Mastectomy

Oktay Karaköse, Hüseyin Pülat, Hasan Erol Eroğlu  
Süleyman Demirel Üniversitesi Tıp Fakültesi, Cerrahi Onkoloji BD. Isparta, Türkiye

*Makalemiz, 19. Ulusal Cerrahi Kongresine poster olarak gönderilmiştir.*

#### Özet

Meme kanseri kadınlarla en sık görülen kanserdir. 85 yaşına ulaşan her sekiz kadından birinde (%13,4) meme kanserine yakalanma riski vardır. Meme kanserlerinin % 5-10'una, kalıtımsal geçiş gösteren BRCA-1 ve BRCA-2 gibi germline mutasyonlar yol açar. Mutasyon taşıyıcılarında yaşam boyu meme kanseri gelişme riski % 90'a, over kanseri gelişme riski ise % 40'a varmaktadır. Profilaktik mastektomi mevcut korunma yolları arasında meme kanseri oluşma riskini en etkin şekilde azaltan tedavi yöntemidir. Biz bu çalışmada, BRCA gen analizi sonrası yaşam boyu meme ve over kanseri gelişme riski yüksek tespit edilen, profilaktik amaçlı bilateral ooforektomi ve bilateral mastektomi olan 39 yaşında bir kadın olgumuzu sunmayı amaçladık.

#### Anahtar Kelimeler

Meme Kanseri; Profilaktik Mastektomi; BRCA Gen Mutasyonu

#### Abstract

Breast cancer is the most common cancer in women. One in eight women reached at the age of 85 (13,4 %), are at risk of developing breast cancer. 5-10% of breast cancers inherited and passes germline mutations such as BRCA-1 and BRCA-2. In mutation carriers, lifetime risk of developing breast cancer is 90%, the risk of developing ovarian cancer is 40%. In existing protection ways, prophylactic mastectomy is the most effective way to reduce risk of breast cancer occurrence. In this study, we aimed to present a 39 years old woman case who detected high risk of developing lifetime breast and ovarian cancer after BRCA genes analyze and performed prophylactic bilateral oophorectomy and bilateral mastectomy.

#### Keywords

Breast Cancer; Prophylactic Mastectomy; BRCA Gene Mutation

DOI: 10.4328/JCAM.2340

Received: 12.02.2014 Accepted: 16.03.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 378-80

Corresponding Author: Oktay Karaköse, Süleyman Demirel Üniversitesi Doğu Yerleşkesi, Araştırma ve Uygulama Hastanesi, 32260, Çünür, Isparta, Türkiye.

GSM: +905065348909 F.: +90 2462112830 E-Mail: oktaykarakose@gmail.com

## Giriş

Memekanseri kadınlar arasında en sık görülen kanserdir. 85 yaşına ulaşan her sekiz kadından birinde (%13,4) memekanserine yakalanma riski vardır. Ailede memekanseri veya over kanseri varlığı veya erken yaşta memekanserine yakalanan bir akrabanın olması, bilinen BRCA-1, BRCA-2 mutasyonu memekanser riskini artırmaktadır; dolayısıyla bu hastalarda hekimleri kanser oluşum riskini azaltmaya yönelik birtakım önlemler almaya itmektedir [1]. Memekanserlerinin % 5-10'una, değişen penetranssta otozomal dominant kalıtsal geçiş gösteren BRCA-1 ve BRCA-2 gibi germline mutasyonlar yol açar. BRCA-1'deki germline mutasyonlar kalıtsal memekanserlerinin % 45'inde, kalıtsal over kanserlerinin ise en az % 80'de predispozan bir genetik faktördür. Kadın mutasyon taşıyıcılarında % 90'a varan bir yaşam boyu memekanseri gelişme riski ve % 40'a varan bir yaşam boyu over kanseri gelişme riski vardır. BRCA-2 mutasyonunun taşıdığı memekanseri riski % 85'e yakındır. Yaşam boyu over kanseri gelişme riski ise % 20'ye yakın olarak hesaplanmıştır [2]. Biz bu çalışmada, BRCA gen analizi sonrası yaşam boyu memekanseri gelişme riski yüksek tespit edilen, profilaktik amaçlı bilateral ooforektomi ve bilateral mastektomi olan 39 yaşında bir kadın olgumuzu sunmayı amaçladık.

## Olgu Sunumu

39 yaşında kadın hastadır. Annesi 48 yaşındayken bilateral memekanseri nedeniyle bilateral mastektomi ve aksiler diseksiyon ameliyatı olmuş. Annesinin babaannesi memekanseri nedeniyle vefat etmiş. Halası endometrium kanseri nedeniyle ope-re olmuş. Memekanseri ve jinekolojik muayenesinde patoloji tespit edilmeyen hasta, aile öyküsü nedeniyle kansere yakalanacağı endişesini taşıyordu. Bunun üzerine kendisine BRCA gen analizi yaptırmasını önerdim. Özgeçmiş ve aile öyküsü göz önüne alınarak yapılan incelemede mutasyon riskinin yaşıtlarına göre BRCA-1 için 14 kat, BRCA-2 için 18 kat artmış olduğu hesaplandı. Yaşam boyu memekanseri yakalanma riski % 65.5, over kanserine yakalanma riski % 72.4 olarak hesaplandı. Bu riskle yaşamak istemediğini, profilaktik salpingoooforektomi ve mastektomi olmak istediğini bildirdi. Histerektomi ve profilaktik salpingoooforektomi olmasının ardından kliniğimize bilateral mastektomi için başvurdu. Hastaya bilateral cilt koruyucu mastektomi ile beraber aynı seansta bilateral subpektoral alana klasik Becker tip protez yerleştirildi (Resim 1,2). Postoperatif komplikasyon gelişmeden taburcu edildi. Bu operasyonlardan sonra psikolojik olarak rahatlama ve memnun olduğunu bildirdi. Postoperatif histopatolojik incelemede sağ memede lobüler hiperplazi, sol memede sklerozan adenozis rapor edildi.

## Tartışma

BRCA mutasyonu olan bir kadının memekanseri yakalanma riski 30 yaşında yaklaşık %30 olmaktadır ve bu 50 yaşına kadar her yıl %2, 50 yaş sonrasında her yıl %1 artarak 70 yaşında yaklaşık %85-90'a ulaşmaktadır [3].

Profilaktik mastektomi endikasyonları; güçlü aile hikâyesi (50 yaşından önce memekanseri yakalanan anne, kız kardeş veya kız çocuğu), BRCA-1 veya BRCA-2 gen mutasyonu, geçirilmiş memekanseri hikâyesi, duktal ya da lobüler karsinoma insitu tanısı almış olmak, 30 yaşından önce göğüs bölgesine işin tedavisi almış olmak, mamografide yaygın mikrokalsifikasyon odak-



Resim 1. Bilateral cilt koruyucu mastektomi, operasyon görüntüsü.



Resim 2. Postoperatif erken dönem görüntüsü.

ları olması ve hastanın isteğidir [4].

Profilaktik mastektomi, BRCA mutasyonu taşıyan kadınların kanser riskini ciddi oranda azaltmaktadır. BRCA gen mutasyonu taşıyan 570 sağlıklı kadınların takibini içeren bir çalışmada, mutant geni taşıyan bu kadınlardan 212 tanesi profilaktik mastektomi ameliyatı geçirmiştir. İzleyen zamanda, bu ameliyatı olmamış kadınların %16'sı memekanseri tanısımasına rağmen, ameliyat olanların hiçbir memekanseri yakalanmamıştır [5]. Yapılan çalışmalar profilaktik mastektominin memekanseri insidansını ve memekanserinden ölüm oranını azalttığını göstermiştir. Güçlü aile hikâyesi olan kadınlar en yüksek riskli olarak bildirilmektedir [6]. Skolnik ve arkadaşlarının dört kadrandan biopsiler alarak yaptıkları çalışmada ailesinde memekanseri hikâyesi olan kadınlarında atipik duktal hiperplazinin kontrol grubundaki hastalara oranla 3 kat yüksek olduğu bildirilmiştir [7]. Profilaktik mastektomi, memekanserinden korunma yolları arasında en etkin yöntemdir. Çeşitli yaynlarda koruyuculuk oranı 10 yıllık takiplerde %85-94 arasında değişmektedir [8]. Reynolds ve ark. tarafından yapılan çalışmada, BRCA mutasyon taşıyıcılarında profilaktik meme başı koruyucu mastektominin uygun ve güvenli olduğu bildirilmiştir [9]. Yine Peled ve ark.ının yaptığı çalışmada BRCA mutasyonu olan hastalarda deri koruyucu mastektomi 4 yıllık takipte güvenli bir işlem olarak bildirilmiştir [10]. Biz de hastamıza bu işlemi uyguladık.

Derikoruyucu mastektomi sonrasında meme başı, areola, aksiller kuyruk ve deri fleplerinin altında %5-10 arasında meme dokusunu kalmaktadır. Deri flepleri nekadar ince kaldırılırsa geride kalan doku miktarı okadar az olmakta; ancak ince kaldırılan fleplerde nekroz görülmeye olasılığı da artmaktadır [11]. Biz operasyon sırasında geride kalan meme dokusunun mümkün olduğunda az olması için, flepleri ince tutduk.

Pahalı olması ve yabancı bir cisim yerleştirilmesi gibi dezavantajlarına karşın, basitliği, operasyon süresinin kısalığı ve hasta tatmininin çok yüksek olması nedeniyle seçilmiş hastalarda Becker tip protez ile rekonstrüksiyonun iyi bir seçenek olduğu düşünülmektedir [12]. Bu avantajlarının yanında, fleplerdeki incelikten dolayı oluşabilecek nekroz olasılığı nedeniyle rekonstrüksiyon için Becker tip protez tercih ettiğimiz.

Bir ailede 50 yaşından önce over ya da meme kanseri gelişmiş iki ya da daha fazla kadın varsa kalıtsal meme kanseri riski dikkate alınır [13]. Bizim hastamızın annesi 48 yaşında bilateral meme kanseri olması nedeniyle hastamızın gen analizi yapılmasını istedik. Sosyal Güvenlik Kurumu tarafından ödenmediği için hasta tarafından karşılandı. Endikasyonu olan her hastaya bu analizin yapılması durumunda profilaktik mastektomi sayısının artacağını düşünmektedir.

Profilaktik mastektomi sonrası aynı oturumda meme onarımı yapılması, hastanın beden imge algısında yaşayacağı değişiklikleri en aza indirmesi ve daha sonra ek bir travma yaşamamasını ortadan kaldırmasıyla daha avantajlıdır [11].

Sonuç olarak güclü aile hikayesi olan kadınlar meme kanseri gelişmesi açısından yüksek riske sahiptir. Meme kanseri riski taşıyan kişilerde profilaktik mastektomi yapılması büyük oranda koruyuculuk sağlamaktadır. Deri koruyucu mastektomi BRCA mutasyonu olan hastalarda güvenli bir işlemidir. Eş zamanlı onarım yapılması en iyi seçenektedir.

#### **Çıkar Çakışıması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Klijn JG, Janin N, Cortés-Funes H, Colomer R. Should prophylactic surgery be used in women with a high risk of breast cancer? *Eur J Cancer* 1997;33(13):2149-59.
2. Hunt KK, Newman LA, Copeland EM, Bland KI. The Breast. In: Brunicardi FC, Andersen DK, Billiar TR, Dunn DL, Hunter JG, Matthews JB, Pollock RE, editors. Schwartz's Principles of Surgery. 9th ed. McGraw-Hill; 2010. p. 438-40.
3. Ford D, Easton DF, Bishop DT, Narod SA, Goldgar DE. Risks of cancer in BRCA-mutation carriers. *Lancet* 1994;343(8899):692-5.
4. Sahin I, Isik S, Alhan D, Yıldız R, Aykan A, Ozturk E. One-staged silicone implant breast reconstruction following bilateral nipple-sparing prophylactic mastectomy in patients at high-risk for breast cancer. *Aesthetic Plast Surg* 2013;37(2):303-11.
5. Heemskerk-Gerritsen BA, Menke-Pluijmers MB, Jager A, Tilanus-Linthorst MM, Koppert LB, Obdeijn IM, et al. Substantial breast cancer risk reduction and potential survival benefit after bilateral mastectomy when compared with surveillance in healthy BRCA-1 and BRCA-2 mutation carriers: a prospective analysis. *Ann Oncol* 2013;24(8):2029-35.
6. Lostumbo L, Carbine N, Wallace J. Prophylactic mastectomy for the prevention of breast cancer. *Cochrane Database Syst Rev* 2010; DOI: 10.1002/14651858.CD002748.pub3.
7. Skolnick MH, Cannon-Albright LA, Goldgar DE, Ward JH, Marshall CJ, Schumann GB, et al. Inheritance of proliferative breast disease in breast cancer kindreds. *Science* 1990;250(4988):1715-20.
8. McDonnell SK, Schaid DJ, Myers JL, Grant CS, Donohue JH, Woods JE. Efficacy of contralateral prophylactic mastectomy in women with a personal and family history of breast cancer. *J Clin Oncol* 2001;19(19):3938-43.
9. Reynolds C, Davidson JA, Lindor NM, Glazebrook KN, Jakub JW, Degnim AC, et al. Prophylactic and therapeutic mastectomy in BRCA mutation carriers: can the nipple be preserved? *Ann Surg Oncol* 2011;18(11):3102-9.
10. Peled AW, Irwin CS, Hwang ES, Ewing CA, Alvarado M, Esserman LJ. Total skin-sparing mastectomy in BRCA mutation carriers. *Ann Surg Oncol* 2014;21(1):37-41.
11. Woerdeman LA, Hage JJ, Smeulders MJ, Rutgers EJ, van der Horst CM. Skin-sparing mastectomy and immediate breast reconstruction by use of implants: An assessment of risk factors for complications and cancer control in 120 patients. *Plast Reconstr Surg* 2006;118(2):321-30.
12. Görgü M, Ayhan M, Ülger Durmuş E, Karataş Siliştreli Ö, Demirdöver C, Öztan HY. Memekonstrüksiyon ve meme deformitelerinin düzeltilmesinde Becker protez kullanımı. *Türk Plast Rekonstr Est Cer Derg* 2005;13(1):9-13.
13. Frank TS. Testing for hereditary risk of ovarian cancer. *Cancer Control* 1999;6(4):327-34.

1999;6(4):327-34.

#### **How to cite this article:**

Karaköse O, Pülat H, Eroğlu HE. Prophylactic Mastectomy: Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 378-80.



## Cesarean Section and Femur Fracture: A Rare Complication

### Sezaryenla Doğum Esnasında Gelişen Sağ Femur Fraktürü: Nadir Bir Komplikasyon

Sezaryenla Doğum Esnasında Gelişen Sol Femur Fraktürü / Cesarean Section and Femur Fracture

Eyüp Çağatay Zengin, Volkan Güneyli, Turan Taş  
Sivas Devlet Hastanesi, Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, Sivas, Türkiye

#### Özet

Doğum travmasına bağlı femur kırığı gelişimi nadir olmakla birlikte sezaryenle doğum esnasında meydana gelebilir. Bu olgu sunumunda makat geliş nedeniyle sezaryen uygulanan hastada gelişen sağ femur kırığını tartıştık. Yenidoğan bryant traksiyonunda immobilize edilerek tedavi edildi. Femur kırığı gelişen olgularda hastanede 3 hafta bryant traksiyon uygulamanın güvenli ve başarılı bir tedavi yöntemi olduğunu düşünmektediriz.

#### Anahtar Kelimeler

Yenidoğan; Doğum Travması; Femur Kırığı; Sezaryen

#### Abstract

Femoral fracture due to birth trauma which is rare, can occur during cesarean section. This case represents a newborn delivered by cesarean section for breech presentation who sustained proximal fracture of the femur. Then newborn was treated with immobilization in bryant traction. Bryant's traction for 3 weeks in hospital is a safe method for the treatment of femoral fractures in neonates, and the outcome is good.

#### Keywords

Neonate; Birth Injuries; Femoral Fracture; Cesarean

DOI: 10.4328/JCAM.2349

Received: 21.02.2014 Accepted: 16.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 381-2

Corresponding Author: Eyüp Çağatay Zengin, Sivas Devlet Hastanesi, Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, Sivas, Türkiye.  
GSM: +905052522836 E-Mail: zengincagatay@hotmail.com

## Giriş

Doğuma bağlı yenidoğan travması nadir olarak görülmekle birlikte, doğum esnasında gelişebilecek uzun kemik kırıkları iri bebek ve makat geliş gibi doğum zorlaştıran durumlarda daha sık meydana gelir [1]. Makat geliş nedeniyle sezaryen uygulanan hastalarda femur kırığı gelişimi daha nadir olmakla birlikte yinede mümkün olduğu literatürde bildirilmiştir [2]. Hannah ve ark. çok merkezli randomize yaptıkları çalışmada; uzun kemik kırığı gelişimi sezaryenle doğum esnasında %0.1 iken, vajinal doğumda bu oran %0.5 olarak rapor edilmiştir [3]. Bu olgu sunumunda makat geliş nedeniyle sezaryen uygulanan hastada gelişen sağ femur kırığını tartışmayı amaçladık.

## Olgu Sunumu

Sağlıklı 32 yaşında annenin 2. gebeliğinin 38. haftasında makat geliş nedeniyle epidural anestezi altında sezaryen ile doğan, 2480 gr ağırlığında kız bebek doğum sonrası yapılan ilk muayenede sağ uylukta belirgin ödem, deformite ve karşı ekstremitete kıyasla hareketlerinde zayıflık tespit edildi. Klinik şüphe üzerine ortopedi tarafından değerlendirilen hastaya çekilen uyluk 2 yönlü grafide sağ femur proksimalinde komplet deplase fraktür tespit edildi (Resim 1). Direkt grafide kemik yapısı ve minerilizasyonu normal olarak değerlendirildi. Yeni doğanda başka bir kemik kırığı, gözlerde mavi sklera veya hipotoniye rastlanmadı. Hastaya yenidoğan yoğun bakım servisinde, kalça 90° fleksiyonda diz tam ekstansiyonda bryant traksiyon kurularak sağ femur immobilize edildi (Resim 2). 10. Günde çekilen kontrol uyluk grafisinde kallus gelişiminin başladığı, 20. günde kallus dokusunun belirginleştiği gözlandı. 3 hafta sonunda traksiyon sonlandırdı, pavlik bandajına geçilerek hasta taburcu edildi. Taburculuk sonrası 2 hafta pavlik bandajında takip edilen hastada 5. hafta sonunda çekilen grafide kaynamanın görülmesi üzerine pavlik bandajı sonlandırıldı (Resim 1). Doğumdan 20 hafta sonra yapılan muayenede her iki alt ekstremitenin eşit uzunlukta ve hareketlerinde kısıtlılık olmadığı görüldü.

## Tartışma

Literatürde sezaryen esnasında meydana gelen femur kırığı olusu oldukça nadirdir [4]. İkiz gebelik, uterusun yetersiz gevşemesi, myom varlığı ve bizim olgumuzda olduğu gibi makat prezantasyonu bu komplikasyonun gelişimine zemin hazırlayan faktörler arasında sayılmalıdır [5]. Zor doğum öyküsü olan yenidoğanın ilk muayenesinde lokalize hassasiyet, şişlik ve deformiteye eşlik eden kırılma bulunan hastalarda tanı için direkt radyografiler yeterlidir. Femur kırığı tespit edilen hastalarda damar



Resim 2. Sağ bacak ekstansiyonda immobilize edildi

ve sinir muayenesi yapılmalı bulgular karşı taraf ile karşılaştırılmalıdır [4]. Nazik redüksiyonu takiben atel veya traksiyonda tespit uygulanır [4]. Tespitten sonra nörovasküler bir sorun saptanırsa atel açılmalı ve tekrar manipülasyon yapılmalıdır [4]. Bizim olgumuzda redüksiyon öncesinde veya sonrasında nörovasküler muayene normal olarak değerlendirildi. Yeni doğandaki femur kırığı tedavisinde pavlik bandajı, bryant traksiyon ve pelvipedal alçı uygulanabilir [5]. Biz hastamızda ilk 3 hafta uygun bir pozisyon sağlamak için bryant traksiyon uyguladık. Cilt traksiyonu oldukça etkili olmakla birlikte akılda tutulması gereken çeşitli sorunlar ve komplikasyonlar vardır. Popliteal arterin gerilmesine ve eksternal sarginın bacağa kompresyonundan kaynaklanabilen dolaşım bozukluğu ciddi bir komplikasyondur [5]. Bunun dışında cilt traksiyonunun tüm tiplerinde cilt kabarması ve soyulmasına karşı dikkatli olunmalıdır. Uyluk çok şiş ise aşırı kalça fleksiyonu femoral sinir palsisine yol açabilir, bu yüzden tedavi sırasında kuadriiceps fonksiyonu haftalık olarak takip edilmelidir [5]. Kallus dokusu gelişimini takiben uygulanan pavlik bandajı, pelvipedal alçıya kıyasla aile için bebeğin bakımını oldukça kolaylaştırmaktadır.

Sonuç olarak; sezaryenle doğum vajinal doğumla karşılaştırıldığında özellikle makat prezantasyonu gibi durumlarda komplikasyon gelişimini azaltır fakat tamamen ortadan kaldırılmamaktadır. Biz femur kırığı gelişen olgularda bryant traksiyon ve takiben pavlik bandaj uygulamanın güvenli ve basit bir tedavi yöntemi olduğunu düşünmektedir.

## Çıkar Çakışıması ve Finansman Beyanı

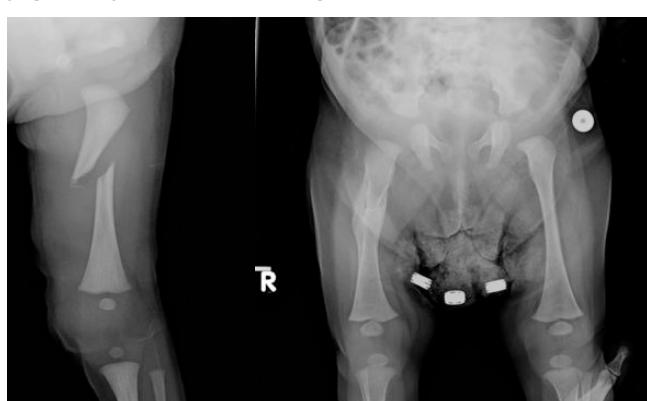
Bu çalışmada çıkar çakışıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

## Kaynaklar

- Cebesoy FB, Cebesoy O, Incebiyik A. Bilateral femur fracture in a newborn: an extreme complication of cesarean delivery. *Arch Gynecol Obstet.* 2009;279(1):73-4.
- Burke SW, Jameson VP, Roberts JM. Birth fractures in spinal muscular atrophy. *J Pediatr Orthop.* 1986;6(1):34-6.
- Hannah ME, Hannah WJ, Hewson SA, Hodnett ED, Saigal S, Willan AR. Planned caesarean section versus planned vaginal birth for breech presentation at term: a randomised multicentre trial. *Lancet.* 2000;356(9239):1375-83.
- Givon U, Sherr-Lurie N, Schindler A, Blankstein A, Ganel A. Treatment of femoral fractures in neonates. *Isr Med Assoc J.* 2007;9(1):28-9.
- Matsubara S, Izumi A, Nagai T, Kikkawa I, Suzuki M. Femur fracture during abdominal breech delivery. *Arch Gynecol Obstet.* 2008;278(2):195-7.

## How to cite this article:

Zengin EÇ, Güneyli V, Taş T. Cesarean Section and Femur Fracture: A Rare Complication. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 381-2.



Resim 1. Sol tarafta kırık hattı görülmekte, sağ tarafta tedavi sonrası kırık hattının kaynadığı görülmekte.



## HPV Negative Seborrheic Keratosis of Genital Area

### Genital Bölgede HPV Negatif Seboreik Keratoz

Genital Seboreik Keratoz / Seborrheic Keratosis of Genital Area

Korkut Bozkurt<sup>1</sup>, Şenay Ağırçıl<sup>2</sup>, Hayati Beka<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Milas Devlet Hastanesi Patoloji Bölümü, Muğla, <sup>2</sup>Milas Devlet Hastanesi Dermatoloji Kliniği, Muğla, <sup>3</sup>İstanbul Üniversitesi, İstanbul Tıp Fakültesi, Tibbi Mikrobiyoloji Anabilim Dalı, Viroloji ve Temel İmmünloloji Bilim Dalı, İstanbul, Türkiye

#### Özet

Seboreik keratoz (SK) deride görülen en sık benign epidermal tümördür ve genellikle gövdede, deriden kabarık, kahverengi-siyah renkte, papul, plak veya nodul şeklinde görülür. Seboreik keratoz sıklığına rağmen etyolojisi bilinmez. Lezyonların büyümeye ve mikroskopik özellikleri sıklılkere benzer fakat human papilloma virus (HPV) genellikle saptanmaz. Genital bölgede SK nadir görülür. Burada 41 yaşında erkek hastada sadece genital bölge yerleşimli bir SK olgusu nadir görüldüğü için sunulmuştur. Bu olgunun HPV ile ilişkisini belirlemek amacıyla hibrid capture 2 yöntemi ile HPV DNA taraması yapılmış fakat tespit edilmemiştir. Kondilomalarda seboreik keratoz ayırcı tanıda düşünülmeli ve gereğinde dermoskopi ve histopatoloji ile tanı kesinleştirilmelidir. Genital bölge seboreik keratozlarında HPV taramasının yapılacağı kapsamlı çalışmalar HPV' nin SK patogenezindeki yerinin belirlenmesine katkı sağlayacaktır.

#### Anahtar Kelimeler

Seboreik Keratoz; HPV DNA Testleri; Kondiloma Akuminata

#### Abstract

Seborrheic keratoses (SK) are most common tumors and they are most common on the trunk. The lesions are found in varying color brown to black and forms; papules, plaques, nodules. The origin of SK is unknown. Although they often have the same gross and microscopic patterns with common warts, human papilloma virus (HPV) particles are usually not present. Seborrheic keratoses rarely occurs in the genital area and is often neglected in differential diagnosis of polypoidal lesions like condylomas. Because of a rare condition here a case of 41 year-old, male patient with seborrheic keratoses in the genital area was presented. Human papilloma virus DNA was not detected in the lesion by hybrid capture 2 assay. Seborrheic keratoses should be considered in the differential diagnosis of condylomas and the diagnosis should be confirmed by dermoscopy and histopathology. HPV screening in these lesions will help to clarify the pathogenic contributing role of HPV.

#### Keywords

Seborrheic; HPV DNA Tests; Condylomata Acuminata

DOI: 10.4328/JCAM.2362

Received: 21.02.2014 Accepted: 17.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 383-5

Corresponding Author: Şenay Ağırçıl, Milas Devlet Hastanesi Dermatoloji Kliniği, Milas, Muğla, Türkiye.

E-Mail: senayagircil@hotmail.com

## Giriş

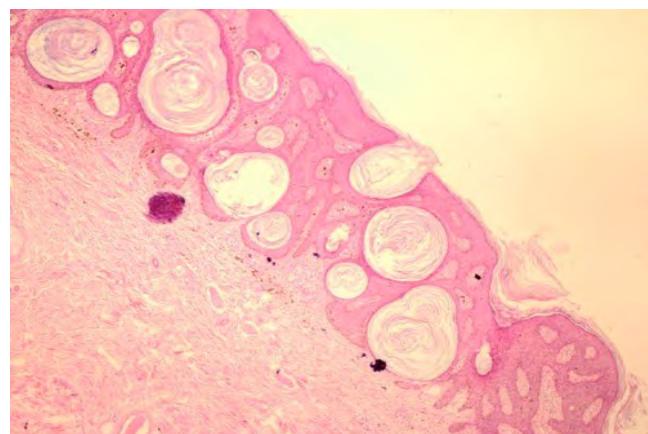
Seboreik keratoz (SK) deride görülen en sık benign epidermal tümördür ve genellikle gövdede bulunur. Ayrıca yüzde saçlı deri sınırlında, ensede, kol ve bacakların üst kısımlarında da görülebilir. Seboreik keratoz patogenezi bilinmemektedir [1,2]. Yaşlanma ve güneşe maruziyet risk faktörü olarak kabul edilmektedir [3]. Son zamanlarda yapılan bazı çalışmalarla genital ve non-genital SK lezyonlarında human papilloma virus (HPV) tipleri tespit edilmiştir ve patogenezde rol alabileceği düşünülmüşür [4,5]. Seboreik keratoz tanısında klinik muayene sıkılıkla yeterli olmakla beraber atipik olgularda dermoskopi ve histopatolojik inceleme gerekebilir. Histopatolojisinde benign bazaloid epitelyal hücrelerin proliferasyonu ve pseudokistler görülür [1,3]. Burada nadir yerleşim alanı olduğu için sadece genital bölge yerleşimi bir seboreik keratoz olgusu sunulmuştur. Bu olgunun HPV ile ilişkisini belirlemek için hibrid capture 2 (HC2) yöntemi uygulanmıştır.

## Olgu Sunumu

41 yaşında, erkek, bekar hasta, 1 yıldır pubiste başlayıp büyuen ve penis köküne doğru artan kahverengi lezyonlar nedeni ile hastanemize başvurdu. Hastanın yapılan muayenesinde pubisten kırık hat şeklinde vertikal olarak penise doğru uzayan ve penis kökünün üst kısmını horizontal olarak kaplayan kahverengi, üzerinde foliküler çıktılarının belirginleştiği grube, polipoid lezyonlar görüldü. Hastanın isteği ile pubiste ve penis kökünde bulunan lezyonların bir kısmı eksize edildi. (Resim1) Bu dokuların yapılan histopatolojik incelemesinde epidermiste bazaloid hücre proliferasyonu, pseudohorn kistleri, basal keratinositlerde pigmentasyon artışı izlendi. Papiller dermiste dağınık melanofajlar görüldü. (Resim 2) Bu histopatolojik bulgular ile hastaşa seboreik keratoz tanısı kondu. Hastanın tedavisinde kriyoterapi planlandı ancak hasta lezyonlarının tamamının eksize edilmesini tercih etti. Kalan bütün lezyonlar eksize edildi ve histopatolojik olarak incelendi. Bu lezyonların histopatolojik incelemeleri de SK olarak değerlendirildi. 2 farklı zamanda eksize edilen dokularda etyolojiyi belirlemek amacıyla HPV DNA aranması ve tiplendirilmesi için parafin gömülü dokularda HC2 yöntemi uygulandı [6].

## Hibrid Capture 2 yöntemi

Hibrid capture 2 yöntemi nükleik asit sinyal amplifikasyonu temelinde dayanan bir testtir. Kemolüminasyon yoluyla tespit es-



Resim II. Histopatolojik incelemede pseudohorn kistler (HEx25)

sına dayanır ve HC2 testi temel olarak 5 basamakta çalışır.

- 1) Nükleik asitin denatüre olması ve salınması,
- 2) Hedef DNA ve RNA probunun hibridize olması,
- 3) RNA: DNA hibridlerinin solid faza geçirilmesi,
- 4) Yakalanan hibridlerin multipl antikor konjugatlarıyla reaksiyonu,
- 5) Kemolüminasyon sinyallerinin luminometrede okunması,

Hibrid capture 2 HPV DNA (Qiagen, USA) kiti çalışma prosedürüne uygun bir şekilde kullanılmıştır. HPV DNA düşük risk grubunda 6,11,42,43,44 ve yüksek risk grubunda 16,18,31,33,35,39,45,51,52,56,58,59,68 tipleri yer almaktadır

Bu yöntemle yapılan çalışmada olgumuzda HPV DNA'sı tespit edilmedi. Hasta 6 aydır lezyonsuz olarak takip edilmektedir.

## Tartışma

Seboreik keratoz atipik klinik şekiller ve atipik yerleşim bölgeleri gösterebilir. Genital bölge nadir yerleşim alanıdır ve bildirilen vaka sayısı fazla değildir. Bu bölgedeki lezyonlar kondiloma akuminata ve malign melanom, akrokordon ile karışabilir [7]. Genital seboreik keratozun sebebi çok bilinmemekle birlikte sürünme ve HPV'nin rol alabileceği düşünülmektedir [1]. Sadece genital bölgede yerleşen seboreik keratoz olgu bildirimi nadirdir [7-9]. Jagdeep ve ark. [7] ve Friedman ve ark. tarafından bildirilen olgularda lezyonlar 15 -20 yıl gibi uzun süre mevcuttu [8]. Bizim olgumuzda lezyonlar 1 yıldır vardı ve giderek artıyordu. Histopatolojik inceleme sonucu seboreik keratoz olarak raporlanmaması durumunda hastanın erkek ve bekar olması nedeni ile kondilom tanısı düşünülmerek dermatolojik muayenede foliküler çıktılarının belirginliği de gözden kaçabilirdi.

Seboreik keratoz patogenezi bilinmemektedir. Lezyonlar siğillerle benzer büyümeye paterni ve histopatolojik özellikler gösterir [2]. Non genital SK olgularında HPV birlaklılığı daha önce yapılan çalışmalarla tespit edilmiştir ve patogenezde önemli bir rol aldığı düşünülmüştür [4]. Ackerman sadece genital lezyonu olan ve HPV saptanan olguların ise aslında kondiloma akuminata olduğunu belirtmiştir. Histopatolojik incelemede koilosit bulunması kondilom olarak değerlendirilmesi gerektiği savunulmuştur [10].

Genital bölge SK olgularında PCR ile HPV DNA %70-72 oranında rastlanmıştır [3,5]. Tardio ve arkadaşlarının yaptıkları çalışmada genital SK lezyonlarını HPV ilişkili lezyonlar olarak değerlendirmişlerdir. Bu çalışmada koilositoz ve kondilom ile ortak histopatolojik özellikler içeren olgular çalışma dışı bırakılarak PCR ile



Resim I. Genital bölgede polipoidal lezyonlar

HPV pozitifliği %70 oranında tespit edilmiştir ve en sık HPV 6' a rastlanmıştır. Kırk dokunun değerlendirildiği çalışmada 6 penil SK lezyonlarının sadece penil alana lokalize olup olmadığı bilgisi mevcut değildir. Bu araştırmacılar non genital seboreik keratozlar ile karşılaştırıldığında genital bölgedeki SK lezyonlarında HPV sıklığının fazla olmasının patogenezlerinin farklı olabileceğini savunmuşlardır [3].

Bizim olgumuzun histopatojisinde koilositoz ve HC2 yöntemi ile HPV DNA'sı tespit edilmedi. Olgumuz genital SK patogenezinde HPV dışında bir etken olabileceğini düşündürmektedir.

Sonuç olarak kondiloma akkuminata lezyonlarında SK da ayırcı tanıda düşünülmeli ve gerekirse histopatolojik inceleme yapılmalıdır. Genital seboreik keratoz olgularının çalışıldığı daha geniş olgu serilerinde HPV taraması yapılan çalışmalar, HPV ve SK arasındaki ilişkiyi belirlemeye katkı sağlayacaktır.

#### **Çıkar Çağırması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çığırması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Kirkham N. Tumors and cysts of the epidermis. Lever's histopathology of the skin. Elder DE, Elenitsas R, Johnson BL, Murpy GF editors. 10.th ed. Philadelphia. JB Lippincott Company, 2009. p.791-850.
2. Thomas VD, Swanson NA, Lee KK. Benign epithelial tumors, hamartomas and hyperplasias. Fitzpatrick's dermatology in general medicine. Wolf K, Goldsmith LA, Katz SI, Gilchrest BA, Paller AS, Leffel DJ editors. 7.th ed. The McGrawhill Company, 2008. p.1054-67.
3. Tardío JC, Bancalari E, Moreno A, Martín-Fragueiro LM. Genital seborrheic keratoses are human papillomavirus-related lesions. A linear array genotyping test studuy. APMIS 2012; 120(6): 477-83.
4. Gushi A, Kenakura T, Kanzaki T, Eizuru YJ. Detection and sequences of human papillomavirus DNA in nongenital seborrhoeic keratosis of immunopotent individuals. Dermatol Sci 2003;31(2):143-9.
5. Bai H, Cviko A, Granter S, Yuan L, Betensky RA, Crum CP. Immunophenotypic and viral (human papillomavirus) correlates of vulvar seborrheic keratosis. Hum Pathol 2003; 34(6):559-64.
6. Sandri MT Benini E, Orto DP, Zorzino L, Carozzi FM, Maisonneuve P, et all. Comparison of the Digene HC2 Assay and the Roche AMPLICOR Human Papillomavirus (HPV) Test for Detection of High-Risk HPV Genotypes in Cervical Samples. J Clin Microbiol 2006; 44(6); 6: 2141-6.
7. Thakur JS, Thakur A, Chauhan CGS, Diwan VK, Chauhan DC. Giant pedunculated seborrheic keratosis of penis. Indian J Dermatol 2008; 53(1):37-8.
8. Friedman SJ, Fox BJ, Albert HL. Seborrheic keratosis of penis. Urology 1987;29:204-6.
9. Cheng SF. Seborrheic keratosis of penis. Urology 1974;3:595-7.
10. Li J, Ackerman AB. "Seborrheic keratoses" that contain human papillomavirus are condylomata acuminata. Am J Dermatopathol 1994;16(4):398-405.

#### **How to cite this article:**

Bozkurt K, Ağırçıl Ş, Beka H. HPV Negative Seborrheic Keratosis of Genital Area. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 383-5.

## A Rare Non-Small Cell Lung Tumor; Lymphoepithelioma Like Carcinoma

### Akciğerin Nadir Görülen Küçük Hücreli Dışı Tümörü; Lenfoepitelyoma Benzeri Karsinom

Nadir Görülen Bir Tümör: Lenfoepitelyoma Benzeri Karsinom / A Rare Tumor: Lymphoepithelioma Like Carcinoma

Mustafa Kuzucuoğlu<sup>1</sup>, Yekta Altemur Karamustafaoglu<sup>2</sup>, Fazlı Yanık<sup>2</sup>, Yener Yörük<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Nevşehir Devlet Hastanesi, Göğüs Cerrahisi Kliniği, Nevşehir,

<sup>2</sup>Trakya Üniversitesi Tıp Fakültesi, Göğüs Cerrahisi Ana Bilim Dalı, Edirne, Türkiye

#### Özet

Lenfoepitelyoma benzeri karsinom küçük hücreli dışı akciğer kanserlerinin alt gruba yer alan ve morfolojik olarak nazofarenks yerleşimli lenfoepitelyomaya benzerlik gösteren, akciğerin nadir görülen bir tümördür. İlk olarak 1987 yılında Begin ve arkadaşları tarafından tanımlanmıştır. Biz de kliniğimizde cerrahi uygulanan iki olguya literatür eşliğinde inceledik.

#### Anahtar Kelimeler

Akciğer Kanseri; Lenfoepitelyoma; Epstein Barr Virus

#### Abstract

Lymphoepithelioma-like carcinoma, which belongs to a subgroup of non-small cell lung cancer and morphologically resembles to lymphoepithelioma located in the nasopharynx, is a rare tumor of the lung. It was first described by Begin and others in 1987. We evaluated two patients who underwent surgery in our clinic after reviewing medical literature.

#### Keywords

Lung Cancer; Lymphoepithelioma; Epstein Barr Virus

DOI: 10.4328/JCAM.2368

Received: 26.02.2014 Accepted: 19.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 386-8

Corresponding Author: Mustafa Kuzucuoğlu, Nevşehir Devlet Hastanesi Göğüs Cerrahisi Kliniği, Nevşehir, Türkiye.

GSM: +905334935864 E-Mail: mustafakuzucuoglu@hotmail.com

## Introduction

Lymphoepithelioma-like carcinoma (LLC), which belongs to a subgroup of non-small cell lung cancer and morphologically resembles to lymphoepithelioma located in the nasopharynx, is a rare tumor of the lung. It was first described by Begin et al in 1987 [1-3]. It is mostly found among young, non-smoking male patients in Southeast Asia countries and frequently in Hong Kong, Taiwan and Guangdong regions of China [4]. Although Epstein Barr Virus (EBV) infection is thought to play a major role in its etiology, according to medical literature, its relationship with EBV has not been demonstrated in studies conducted among few non-Asian patients [5]. We evaluated two patients who underwent surgery in our clinic after reviewing medical literature.

## Case Report I

Sixty four years old male patient with a history of cigarette use applied to our hospital on detection of opacity at the right upper zone in the routine control chest X-ray. Thoracic computerized tomography (CT) revealed a soft tissue mass about 2 cm extending through the right upper bronchus and affected several lymph nodes in the mediastinal region with the largest being 11 mm (Figure-1A). Endobronchial lesion was not seen during fiberoptic bronchoscopic examination. With preliminary diagnosis of pulmonary malign neoplasm, a computerized tomography integrated positron emission tomography (PET/CT) was conducted for the aim of staging; results revealed a 4x1.5 cm soft tissue mass at the apex, SUVmax was 16.2, 1cm lymph node at right hilum SUVmax was 3.2 and a SUVmax of 0.9 in the sub-centimeter lymph nodes at inferior lobe of superior segment of the right lung (Figure-1B). Right upper lobectomy and mediastinal lymph node dissection were performed.

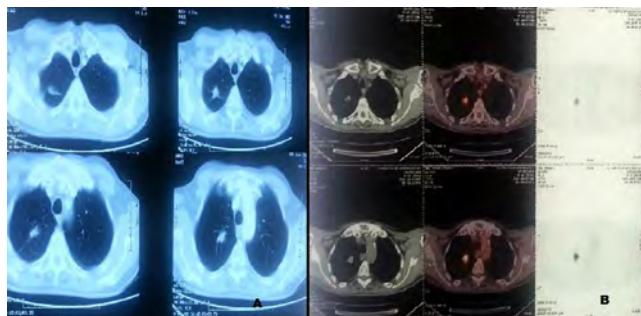


Figure 1. 2-cm mass in the right upper lobe on thorax CT (A), SUVmax 16.2 mass in the right upper lobe on preoperative PET-CT (B).

In the histopathologic evaluation; the macroscopic gross tumor was 2.5x2x2 cm in size, closely related to bronchus, hard, bleeding and had irregular contours. Immunohistochemical studies revealed CD8 positivity in the keratinic, epithelial as well as lymphoid areas of the tumor. The areas were negative for CD1a, S100, CK7 and EBV where as CD68, CD3 and CD20 stained heterogeneously. The lymph nodes numbered 7, 8 and 10 were evaluated as reactive hyperplasia. At the end of the histopathologic assessments, the result was reported as LLC; stage T1bN0M0. There was no need for adjuvant therapy. No recurrence or metastasis was detected in the PET/CT performed at the end of the first year (Figure-2).

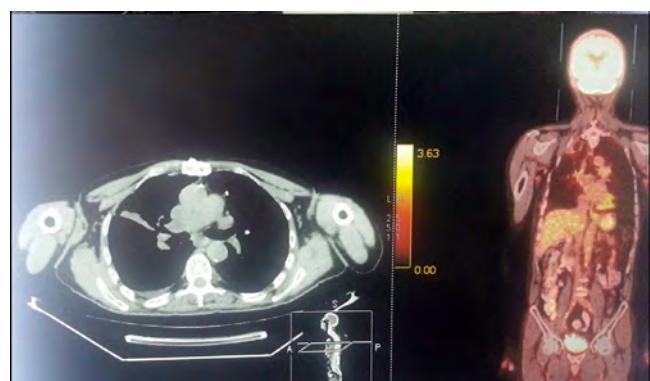


Figure 2. PET-CT appearance of the postoperative first year control

## Case Report II

Sixty years old male patient, a smoker without any complain administered to our clinic on detection of a suspected mass in his chest X-ray at right upper zone of the lung and a 3 cm mass on thoracic CT examination. The PET/CT was reported a malign lesion, 48x57mm oat right lung upper lobe anterior segment with SUVmax:18.5 (Figure-3). Although there was not

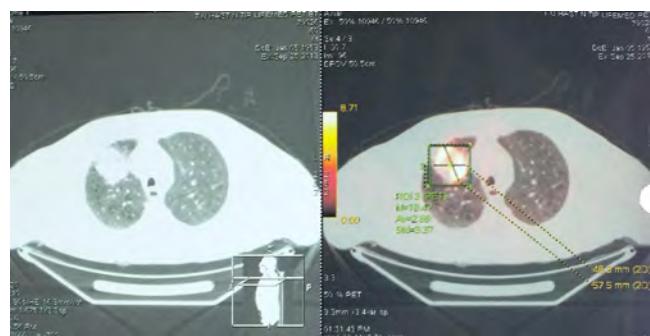


Figure 3. Malign lesion in right upper lobe anterior segment on PET-CT

any endobronchial lesion detected as a result of bronchoscopic investigation, the results of transthoracic fine needle aspiration biopsy were reported as reactive inflammation. The patient whose radiological examination suggested malignity, but no definitive diagnosis had the lymph nodes numbered 2, 4 and 7 excised mediastinoscopically. All lymph nodes were reported as reactive hyperplasia. Right upper lobectomy and mediastinal lymph node dissection was performed.

Result of the histopathologic evaluation; reported a macroscopic tumor 3 cm sized with negative surgical margins. All of the lymph nodes excised from station number 9, 10, and 11 were evaluated as reactive hyperplasia. The result of pathologic evaluations was reported as LLC; stage T1bN0M0. The patient who at this point was on his postoperative 2nd month, was discussed at the oncological meeting and subsequent radiological follow up was planned.

## Discussion

Besides the fact that pulmonary LLC is a rare non-small cell pulmonary carcinoma, interestingly it is more common in Asian patient population and particularly at the south of China. In a study with 32 patients conducted by Han et al [6], LLC has been demonstrated to be related with EBV cover RNA-1 antigen positivity and EBV infection playing a role in the pathogenesis of the tumor.

Lymphoepithelioma like carcinoma (LLC) is histologically highly similar with the lymphoepithelioma of nasopharynx. Up to now, similar histological characteristics were detected in the stomach, skin, thymus, secretory glands, uterus, cervix, urinary system and lungs. Since the relationship of nasopharyngeal lymphoepitheliomas with EBV is demonstrated, serological, immunohistochemical or gene studies should be performed in LLC of other sites [7]. Bildirici et al. [3] reported that histologically the pulmonary LLC cannot be distinguished from undifferentiated nasopharynx carcinoma and for this reason nasopharynx carcinoma and lymphoma should be ruled out by tissue biopsies. Detection of strong positivity for cytokeratin and epithelial membrane antigen in neoplastic cells supports diagnosis. Castro et al. [8] have also studied tissue leukocyte common antigen staining for the differential diagnosis with lymphoma.

Findings of previous research studies and case reports demonstrate that the tumors are neoplasm with specific clinical and pathological characteristics. Although it is seen in adult patients without differences between genders, in only one case pulmonary LLC of childhood age has also been reported in the medical literature. In a study by Curcio et al.[9], an 8 year old Chinese girl was diagnosed with pulmonary LLC and right upper lobectomy was performed.

Pulmonary LLC is usually not associated with smoking and in contrast to other tumors, cigarette does not play role in its etiology [3,10]. Both of our cases were adult males and were heavy smokers.

In general cases of LLC are diagnosed via surgical operations. Results of minimally invasive procedures may provide information on whether the diagnosis is uncertain or it is a non-small cell pulmonary malignancy of different histopathologic character. Differential diagnosis from the lymphoepithelioma of nasopharynx is difficult. In early stages, curative surgical treatment of lymphoepitheliomas has a better prognosis than other non-small cell pulmonary cancers. Early stage survival results are gratifying in patients who had surgery [3,5,6]. In our cases the diagnosis was only possible by explorative surgery and in both cases lobectomy was performed.

In the study conducted by JC.Ho et al. [11]; the cases with LLC and non-small cell pulmonary carcinomas were compared for prognosis and after 5 years of follow up survival was significantly higher in Stages II,III,IV in cases of LLC, whereas there was no difference between the two groups in Stage I case.

Although lymph node metastasis was discovered in about 25 % of the previous studies, hematogenous metastasis is rarely seen. Hematogenous metastases are only seen in the skeletal system [3].

Adjuvant chemotherapy was beneficial in advanced stage or nonresectable LCC tumors. In chemotherapy, chemotherapy regimens such as Cisplatin + 5-fluorouracil, Gemcitabine + Cisplatin, 5-fluorouracil + Cisplatin + Leucovorin were used in both adjuvant and neo-adjuvant treatments [11,12].

Consequently, pulmonary LLC is a malignancy rarely seen outside Far Eastern Asian countries, not related with EBV and needed to be treated as non-small cell pulmonary cancers. However, in order to determine the causes and responses to treatment of the LLC more case reports and genomic studies are needed.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Begin LR, Eskandari J, Joncas J, Panasci L. Epstein-Barr virus related lymphoepithelioma-like carcinoma of lung. *J Surg Oncol* 1987;36(4):280-3.
2. Chan JK, Hui PK, Tsang WY, Law CK, Ma CC, Yip TT, et al. Primary lymphoepithelioma- like carcinoma of the lung: a clinicopathologic study of 11 cases. *Cancer* 1995;76(3):413-22.
3. Bildirici K, Ak G, Peker B, Metintas M, Alataş F, Erginol S, ve ark. Primary lymphoepithelioma-like carcinoma of the lung. *Tüberküloz ve Toraks Dergisi* 2005;53(1):69-73.
4. Huang CJ, Chan KY, Lee MY, Hsu LH, Chu NM, Feng AC, et al. Computed tomography characteristics of primary pulmonary lymphoepithelioma-like carcinoma. *Br J Radiol* 2007;80(958):803-6.
5. Gözübüyük A, Kavaklı K, Çaylak H, Genç O. Akciger Yerleşimli Lenfoepitelyoma Benzeri Karsinomlu Bir Olgu. *Tur Toraks Der* 2009;10:201-3.
6. Han AJ, Xiong M, Gu YY, Lin SX, Xiong M. Lymphoepithelioma-like carcinoma of the lung with a better prognosis. A clinicopathologic study of 32 cases. *Am J Clin Pathol* 2001;115(6):841-50.
7. Higashiyama M, Doi O, Kodama K, Yokouchi H, Horiuchi K, Mishima K. Lymphoepithelioma-like carcinoma of the lung: analysis of two cases for Epstein-Barr virus infection. *Hum Pathol* 1995;26(11):1278-82.
8. Castro CY, Osrtrowski ML, Barrios R, Green LK, Popper HH, Cagle PT, et al. Relationship between Epstein-Barr virus and lymphoepithelioma-like carcinoma of the lung: a clinicopathologic study of 6 cases and review of the literature. *Hum Pathol* 2001;32(8):863-72.
9. Curcio LD, Cohen JS, Grannis FW, Paz IB, Chilcote R, Weiss LM. Primary lymphoepithelioma-like carcinoma of the lung in a child. Report of an Epstein-Barr virus-related neoplasm. *Chest* 1997;111(1):250-1.
10. Hammar SP. Common neoplasms. In: Dail DH, Hammar SP (Eds). *Pulmonary Pathology*. 2nd ed. New York: Springer-Verlag; 1994.p.1123-7.
11. JC Ho, Wong MP, Lam WK. Lymphoepithelioma-like carcinoma of the lung. *Respirology* 2006;11:539-45.
12. Chang Y-L, Wu CT, Shih JY, Lee YC. New aspects in clinicopathologic and oncogene studies of 23 pulmonary lymphoepithelioma like carcinomas. *Am Surg Pathol* 2002;26:715.

### How to cite this article:

Kuzucuoğlu M, Karamustafaoglu YA, Yanık F, Yörük Y. A Rare Non-Small Cell Lung Tumor; Lymphoepithelioma Like Carcinoma. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 386-8.



## The Antiepileptic Drug Change Treatment of Two Cases with Carbamazepine-Induced Erectile Dysfunction

### Karbamazepine Bağlı Erektıl Disfonksiyon Gelişen İki Olgunun Antiepileptik İlaç Değişimi ile Tedavisi

Karbamazepine Bağlı Erektıl Disfonksiyon / Erectile Dysfunction Due to Carbamazepine

Mehmet Reşit Gören<sup>1</sup>, Cevahir Özer<sup>1</sup>, Zülfikar Arlier<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Üroloji Kliniği, <sup>2</sup>Nöroloji Kliniği, Başkent Üniversitesi Adana Uygulama ve Araştırma Merkezi, Adana, Türkiye

#### Özet

Epileptik erkekler erektıl disfonksiyon gibi cinsel fonksiyon bozukluğundan yakınınlabilirler. Bu hastalarda karbamazepin gibi antiepileptik ilaç kullanımı erektıl disfonksiyonun nedeni olabilir.

#### Anahtar Kelimeler

Epilepsi; Sertleşme Bozukluğu; Karbamazepin

#### Abstract

Male epileptic patients may complain of sexual dysfunction such as erectile dysfunction. In these patients, the use of antiepileptic drugs such as carbamazepine may be a cause of erectile dysfunction.

#### Keywords

Epilepsy; Erectile Dysfunction; Carbamazepine

DOI: 10.4328/JCAM.2371

Received: 27.02.2014 Accepted: 17.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 389-91

Corresponding Author: Mehmet Reşit Gören, Dadaloğlu Mh. Serinevler 2591 Sk. No:4/A, 01250, Yüreğir, Adana, Türkiye.

T: +90 3223272727 Dahili:2100 E-Mail: drresitg@yahoo.com

## Giriş

Epilepsi hem erkeklerde hem de kadınlarda artmış cinsel fonksiyon bozukluğu ile birliktedir [1]. Epileptik hastalarda görülen cinsel fonksiyon bozukluğunun etiyolojisinde birçok faktör rol oynamaktadır. Epilepsinin kendisi cinsel fonksiyon bozukluğuna neden olabildiği gibi bu durum antiepileptik ilaç kullanımına bağlı iyatrojenik de olabilir [1].

Biz bu yazında, karbamazepin kullanımına bağlı cinsel fonksiyon bozukluğu gelişen iki olguya ve bu olguların tedavi sürecine yaklaşımı tartıştık.

## Olgu Sunumu 1

34 yaşında erkek hasta cinsel istekte azalma ve erektil disfonksiyonla polikliniğimize başvurdu. Hastanın IIEF-5 skoru 5 idi. Hastada erektil disfonksiyon ile beraber yorgunluk, libido azalması, çabuk sinirlenme ve uykı problemleri mevcuttu. Hastada belirgin depresif ruh hali dikkat çekiciydi. Özgeçmişinde epilepsi nedeniyle yaklaşık 20 yıldır karbamazepin kullanımını dışında özellik yoktu fakat hasta son birkaç aydır konvülzyon ataklarının arttığından da yakınmakta idi. Total testosterone düzeyi 4,77 ng/mL (Referans değerleri: 3,5-5 ng/mL) olmasına rağmen Seks hormon bağlayıcı globulin(SHBG) 89,6 nmol/L (Referans değeri: 14,5-48,4 nmol/L) idi. Serum albümün düzeyi ise 4,6 mg/dL olarak tespit edilmişti. Bu değerler ile hesaplanan serbest testosterone 0,0469 ng/mL (%0,983) iken biyoaktif testosterone ise 1,17 ng/mL(%24,6). Hasta SHBG düzeyini artırabilecek diğer nedenler açısından endokrinoloji kliniğine danıştı. Hastanın yüksek SHBG düzeyinin karbamazepine bağlı olduğuna karar verilerek hasta antiepileptik tedavisinin düzenlenmesi için nöroloji kliniğine danıştı ve hastanın ilaç tedavisine valproat ile devam edilmesi kararlaştırıldı. Valproat tedavisinin birinci ayında hasta yeniden değerlendirildi. IIEF-5 skoru 24 olan hastanın total testosterone 4,8 ng/mL, SHBG 32 nmol/L albümün ise 4,1 g/dL, hesaplanan serbest testosterone 0,105 ng/mL (%2,19) ve biyoaktif testosterone düzeyi de 2,35 ng/mL (%49,1) geldi. Hasta ED ve diğer bütün yakınlarının iyileştiğini belirtmiştir.

## Olgu Sunumu 2

Erektil disfonksiyon ve cinsel isteksizlik şikayeti ile başvuran 41 yaşındaki erkek hastanın IIEF-5 skoru 8 idi. Hastanın ED ile beraber yorgunluk ve libido azalması yakınması mevcuttu. Epilepsi nedeniyle yaklaşık 14 yıldır karbamazepin tedavisi alan hastanın total testosterone düzeyi 3,6 ng/mL, SHBG 81 nmol/L, albümün 4,01 g/dL, hesaplanan serbest testosterone 0,0387 ng/mL (%1,07) ve biyoaktif testosterone düzeyi ise 0,848 ng/mL (%23,6) idi. Hasta SHBG yükseğine neden olabilecek diğer nedenler açısından endokrinoloji bölümü ile konsülte edildi. Hastanın yüksek SHBG düzeylerinin karbamazepine bağlı olduğuna karar verilerek hastanın antiepileptik ilaç tedavisi nöroloji bölümü ile konsülte edilerek valproat ile değiştirildi. Valproat tedavisinin 1. ayında yapılan değerlendirmede hastanın IIEF-5 skorunda 12 puan artış (total puan 20) tespit edildi. Hastanın total testosterone düzeyi 4,3 ng/mL, SHBG 33 nmol/L, albümün 4,1 g/dL, hesaplanan serbest testosterone 0,0909 ng/mL (%2,11) ve biyoaktif testosterone düzeyi ise 2,04 ng/mL (%47,3) olarak gözlendi. Hasta ED ve diğer yakınmalarının iyileştiğini belirtmiştir.

## Tartışma

Cinsel fonksiyon bozukluğu, cinsel aktivitenin erektil disfonksiyon ve libido kaybı gibi farklı yönlerini ifade etmektedir [1]. Epilepsili hastalarda cinsel fonksiyon bozukluğunun etiyolojisi hala net değildir. Bununla birlikte, etiyolojide temel olarak nörolojik, endokrinolojik, iyatrojenik, psikiyatrik, bilişsel ve psikososyal faktörlerin rol oynadığı düşünülmektedir [2]. Epilepsi, seks hormonlarının kan düzeyini değiştirerek cinsel fonksiyon bozukluğuna neden olabilir [1]. Her iki cinsiyette de cinsel fonksiyonla ilişkili olan biyoaktif testosterone düzeyi epileptik hastalarda sağlık popülasyona göre daha düşüktür [1]. Ayrıca, karaciğer enzimlerini indükleyen fenobarbütal, fenitoin ve karbamazepin gibi antiepileptik ilaçlar da seks hormonlarının kan düzeyini etkileyebilir [3]. Bu ilaçlar, aromataz aracılığı ile testosteroneon östrodiye dönüşümüne neden olurlar. Artmış kan östrodiol düzeyi ise karaciğerde seks hormon bağlayıcı globulin sentezini artırarak biyoaktif testosterone miktarında azalmaya neden olur [1, 3]. Östrodiolin artması hipotalamus ve hipofiz aksı üzerine etki ederek hipotalamustan GnRH'nin, hipofizden de LH ve FSH'in salınımını bloke edebilmektedir. Östradiol, Leydig hücrelerinden LH reseptörlerini azaltarak androjen sentezini de azaltmaktadır [4]. Bunlardan anlaşılacığı üzere karbamazepin indirekt olarak androjen sentezinin her basamağına etki edebilmektedir. Biyoaktif testosterone düzeylerindeki azalma fazla ve uzun süreli olduğunda total testosterone düzeyi normal olmasına rağmen testosterone yetmezliği yakınmaları oluşturabilmektedir [5]. Testosterone yetmezliğinin yakınmalarından biride depresif ruh halidir [5]. Bu nedenle düşük biyoaktif testosterone sahip hastalar psikojenik ED gibi değerlendirilebilmektedir. Sunumunu yaptığımız iki olguda da ED ile beraber testosterone yetmezliğine bağlı yakınmalar (libido kaybı, çabuk sinirlenme, uykusuzluk, depresyon, vb.) mevcuttu. Hayvan modellerinde testosteroneon konvülzyon geçirmesini hem artırabileceği hem de önleyebileceği gösterilmiştir. Bu konudaki en ilginç çalışmaların biride 5 alfa redüktaz inhibitörü finasterid ile yapılmış olan çalışmadır. Kelli tedavisi için testosterone dihidrotestosterona (DHT) dönüşümünün engellenmesi amacı ile finasterid tedavisi alan hastalarda tedavinin kesilmesi ile düzelen, tekrarlayan konvülzyon atakları görülmüştür [6]. Endojen testosterone düzeylerinin aromataz inhibitörleri ile düzeltmesi ile epilepsili bazı erkeklerde konvülzyonları tedavi edilebileceği gösterilmiştir [8]. Sunumunu yaptığımız olguların ikincisinde konvülzyon sıklığında artış yok iken, ilk olgu daha fazla konvülzyon geçirdiğini ifade etmektedir.

Valproat ise enzim indüklemeyen antiepileptik bir ilaçtır ve erkeklerde kullanımının hormonal sistem üzerine minör etkisi olduğu düşünülmektedir [7]. Epilepsisi olan erkeklerde, valproat kullanımı serum androjen konsantrasyonlarını etkileyebilir ve serum FSH seviyesini azaltabilir. Bu durumun, klinik önemi bilinmemekle birlikte valproat kullanan erkeklerde görülen azalmış fertiliteliyi açıklayabileceği bildirilmektedir [8]. Bu nedenle, bizim olgularımızda olduğu gibi, biyoaktif testosterone düşüklüğünün eşlik ettiği cinsel fonksiyon bozukluğuna sahip enzim indükleyen antiepileptik ilaç kullanan hastalarda ilaç tedavisinin enzim indüklemeyen bir ajanla değiştirilmesi makul bir seçenek gibi görünmektedir. Bu hasta grubunda testosterone replasman tedavisi de bir tedavi alternatif olarak karşımıza çıkmaktadır [8]. Fakat epileptik hastalarda testosterone kullanımı epilepsi

ataklarını artırabilmektedir [8]. Bununla birlikte, testosteron replasman tedavisinin ek maliyeti ve yan etkileri nedeniyle antiepileptik ilaç değişimi yapılmayan ya da ilaç değişiminden fayda görmeyen hastalarda uygulanması gerektiğini düşünmektedir. Bu iki olgu aracılığı ile cinsel fonksiyon bozukluğuyla gelen erkek hastanın değerlendirilmesinde hastalık ve ilaç kullanımının sorgulanmasının önemini bir kere daha vurgulamak istiyoruz. İlaçla bağlı gelişen cinsel fonksiyon bozukluğu, eğer yapılabiliyorsa, uygun ilaç değişimi ile başarılı bir şekilde tedavi edilmektedir. Ayrıca, bu basit müdahale ile hasta gereksiz ek ilaç tedavisinin getireceği yan etki ve maliyetten de uzak tutulmuş olur.

#### **Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Molleken D, Richter-Appelt H, Stodieck S and Bengner T. Sexual quality of life in epilepsy: correlations with sex hormone blood levels. *Epilepsy Behav* 2009; 14(1):226-31.
2. Lambert MV. Seizures, hormones and sexuality. *Seizure* 2001; 10(5):319-40.
3. Calabro RS, Bramanti P, Italiano D and Ferlazzo E. Topiramate-induced erectile dysfunction. *Epilepsy Behav* 2009; 14(3):560-1.
4. Erdemir F. The Evaluation of the Relationship Between Obesity and Male Infertility. *J Clin Anal Med* 2013; 4(1):76-82.
5. Barrett-Connor E, Von Muhlen DG and Kritz-Silverstein D. Bioavailable testosterone and depressed mood in older men: the Rancho Bernardo Study. *J Clin Endocrinol Metab* 1999; 84(2):573-7.
6. Reddy DS. Role of hormones and neurosteroids in epileptogenesis. *Front Cell Neurosci* 2013; 7: 115.
7. Rattyja J, Turkka J, Pakarinen AJ, Knip M, Kotila MA, Lukkarinen O, et al. Reproductive effects of valproate, carbamazepine, and oxcarbazepine in men with epilepsy. *Neurology* 2001; 56(1):31-6.
8. Verrotti A, Loiacono G, Laus M, Coppola G, Chiarelli F and Tiboni GM. Hormonal and reproductive disturbances in epileptic male patients: emerging issues. *Reprod Toxicol* 2011; 31(4):519-27.

#### **How to cite this article:**

Gören MR, Özer C, Arlier Z. The Antiepileptic Drug Change Treatment of Two Cases with Carbamazepine-Induced Erectile Dysfunction. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 389-91.



## Syringocystadenoma Papilliferum in an Unusual Location on Vulva: A Case Report

### Vulvada Yerleşmiş Siringokistadenoma Papilliferum: Olgu Sunumu

Siringokistadenoma Papilliferum / Syringocystadenoma Papilliferum

Muzeyyen Duran, Emin Ustunyurt, Alper Turgut, Narter Yeşildağlar  
Sevket Yılmaz Education and Research Hospital, Department of Obs/Gyn, Bursa, Turkey

#### Özet

Siringokistadenoma papilliferum benign bir deri tümörüdür. Tipik lezon genellikle skalpta ve yüzde yumuşak doku kitesi veya papül olarak görülür. Nadir olarak abdominal duvar, vulva, skrotum, göz, dış kulak yolu, meme ucu, koltuk altı ve sırtta görülebilmektedir. Bu hastalığın kaynağı halen net olarak biliinmemektedir. Burada sunduğumuz olguda hasta (30 yaşında bayan hasta) siringokistadenoma papilliferum için sık rastlanan bir lokalizasyon olan vulvanın sağ tarafında yerleşmiş yaklaşık 3 cm çaplı yumuşak doku kitesi sebebi ile polikliniğimize başvurmuştur. Yumuşak doku kitesinin eksize edilmesi ile çıkarılan materyal patolojik incelemeye gönderilmiştir. Patolojik inceleme neticesinde kitlenin siringokistadenoma papilliferum olduğu saptanmıştır. Hasta onamı alınmadığı için makroskopik resim paylaşılamamıştır. Takipte 6 ay sonra nüks izlenmiş ve eksizyon tekrar edilmiş olup, patolojik sonucu siringokistadenoma papilliferum olarak bildirilmiştir. Bu lokalizasyonda nadiren görülen siringokistadenoma papilliferum olgusunu sunmayı amaçladık. Siringokistadenoma benign bir deri tümörüdür ve hastalar genellikle başka bir semptoma yol açmayan yumuşak doku kitesi varlığı yakınıması ile başvurmaktadır. Tedavide kitlenin total eksizyonu yeterli olmakta olup, malign olgulardan ayırmının yapılması önemlidir.

#### Anahtar Kelimeler

Siringokistadenoma; Vulvar Kitleler

#### Abstract

Syringocystadenoma papilliferum (SCAP) is a benign skin tumor. It usually presents as a soft tissue mass or a papule on the scalp and face. Other uncommon reported locations of SCAP are abdominal wall, vulva, scrotum, eyelid, outer ear canal, nipple, axilla and back. The histogenesis of SCAP is still enigmatical. A 30-year-old woman was admitted to the emergency room of the Department of Obstetrics and Gynecology with a soft tissue mass on the right side of vulva, which was approximately 3 cm in diameter. The mass was removed by excision and histopathological diagnosis of the specimen was syringocystadenoma papilliferum. Consent of the patient can not be taken for macroscopic picture. A recurrence was observed after 6 months following excision of the mass; re-excision of the mass was performed and histopathological evaluation identified the same diagnosis. Here we present a case of syringocystadenoma papilliferum located in a relatively unusual site, in which total excision and re-excision of the mass is sufficient for cure. It is essential to make an appropriate differential diagnosis to exclude malign cases in patients who present with an asymptomatic solitary lesion.

#### Keywords

Syringocystadenoma; Vulvar Masses

DOI: 10.4328/JCAM.2361

Received: 21.02.2014 Accepted: 23.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 392-3

Corresponding Author: Muzeyyen Duran, 100. Yıl Mah. Saygıkent Sitesi, A blok D:16 Özluce Nilüfer, Bursa, Turkey.

GSM: +905438090882 E-Mail: drmuzbur@yahoo.com.tr

## Introduction

Syringocystadenoma papilliferum (SCAP) is characterized by papules or plaques, most commonly located on the scalp and face during childhood. Other uncommon reported locations of SCAP are abdominal wall, vulva, scrotum, eyelid, outer ear canal, nipple, axilla and back. The histogenesis of SCAP is still unknown. SCAP occurs either de novo or within a nevus sebaceous. It usually presents as an asymptomatic soft tissue mass. We present an uncommon case of SCAP in a 30-year-old woman, appearing on the right vulva, recurring in the same location after 6 months following excision of the mass in the same location.

## Case Report

A 30-year-old woman presented to the outpatient ward of the Department of Obstetrics and Gynecology with an asymptomatic vulvar mass, which occurred two months before. On vaginal ultrasound examination a mass (2x3 cm) on right vulva was diagnosed. Total excision of the mass was performed and the histopathological evaluation of the specimen revealed hyperkeratosis, acanthosis and papillomatosis. The papillae were extended to both layers of epithelium. The deeper layer was consisted of cuboidal cells, whereas the superficial layer was consisted of columnar cells, some of which showing decapitation secretion. The fibrous tissue essence was invaded by plasma cells (Figure 1). The histopathological findings identified the diagnosis of SCAP. In the follow-up period, a recurrence was observed after 6 months in same location. Re-excision of the mass was performed and histopathological evaluation identified the same diagnosis.

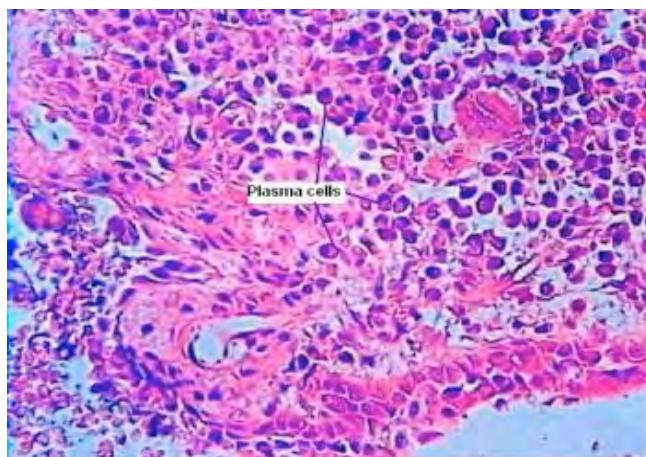


Figure 1. The fibrous stromal core demonstrated plasma cell infiltration.(H&E, X40)

## Discussion

SCAP was first defined by Stokes in 1917 [1]. It commonly presents as a papule or a plaque on the scalp and most of the cases are reported in the head and face [1,2]. Other uncommon reported locations of SCAP are abdominal wall, vulva, scrotum, eyelid, outer ear canal, nipple, axilla and back. In the relatively rare cases of SCAP diagnosed in histopathological evaluation, SCAP originates from the pluripotent cells [3,4,5]. It may spring up within a nevus sebaceous. SCAP present in different clinical forms: as a solitary nodule or a plaque, or in a linear pattern.

Linear pattern is very rare [6,7]. SCAP was reported in other locations but it was rarely reported in the vulva [5, 8]. It commonly presents as an asymptomatic solitary nodule.

It was reported that 10% of SCAP cases grew into basal cell carcinoma [9]. This relation is similar to allelic deletions of human homologue of the *Drosophila* patched gene (PTCH) and P16 tumor suppressor gene has been showed in some cases of SCAP [9,10,11]. It is related with malignant tumors such as basal cell carcinoma, ductal carcinoma, verrucous carcinoma, sebaceous carcinoma [2,6,12]. SCAP has also been reported in other locations but it has seldom been reported in the vulva [5, 6] and it commonly presents as an asymptomatic solitary nodule; it should be kept in mind that it is essential to make an appropriate differential diagnosis to exclude malign cases in patients who present with an asymptomatic solitary lesion.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Stokes JH. A clinico- pathologic study of an unusual cutaneous neoplasm combining nevus syringadenomatous papilliferus and a granuloma. *J Cutan Dis* 1917;35:411-9.
2. Ghosh SK, Bandyopadhyay D, Chatterjee G, Bar C. Syringocystadenoma papilliferum: An unusual presentation. *Pediatr Dermatol* 2009;26(6):758-9.
3. Malhotra P, Singh A, Ramesh V. Syringocystadenoma papilliferum on the thigh: An unusual location. *Indian J Dermatol Venereol Leprol* 2009;75:170-2.
4. Dong Xu, Tienan Bi, Huanrong Lan, Wenjie Yu. Syringocystadenoma papilliferum in the right lower abdomen: a case report and review of literature. *Onco Targets and Therapy* 2013;6:233-6.
5. Nabeel Al-Brahim, Dean Daya, Salem Alowami. A 64-year-old woman with vulvar papule. *Arch Pathol Lab Med* 2005;129:126-7.
6. Yap FB, Lee BR, Baba R. Syringocystadenoma papilliferum in an unusual location beyond the head and neck region: A case report and review of literature. *J Online Dermatol* 2010;16: 4.
7. Pahwa P, Kaushal S, Gupta S, Khaitan BK, Sharma VK, Sethuraman G. Linear syringocystadenoma papilliferum: An unusual location. *Pediatr Dermatol* 2011;28:61-2.
8. Stewart CJ. Syringocystadenoma papilliferum -like lesion of the vulva. *Pathology* 2008; 40(6):638-9
9. Helwig EB, Hackney VC. Syringoadenoma papilliferum. *Arch Dermatol* 1955; 71:361
10. Böni R, Xin H, Hohl D, Panizzon R, Burg G. Syringocystadenoma papilliferum: a study of potential tumor suppressor gene. *Am J Dermopathol* 2011;23:87-9.
11. Calonje E. Tumors of the skin appendages. *Rook's textbook of Dermatology*. UK: Wiley Blackwell; 2010, p.19-20.
12. Abdulla AN, Covert AA, Grantmyre JE. Scrotal syringocystadenoma papilliferum: case report. *Can J Urol* 2009; 16(3): 4684-6.

## How to cite this article:

Duran M, Ustunyurt E, Turgut A, Yeşildağlar N. Syringocystadenoma Papilliferum in an Unusual Location on Vulva: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 392-3.



## Anaphylactic Shock Developing in Association with Cefuroxime Axetil Use

### Sefuroksim Aksetil Kullanımına Bağlı Gelişen Anafilaktik Şok

Sefuroksim Aksetil Kullanımı Sonrası Anafilaktik Şok / Anaphylactic Shock After Cefuroxime Axetil Use

Aynur Sahin<sup>1</sup>, Melih İmamoğlu<sup>2</sup>, Aslı Özcan<sup>2</sup>, Yunus Karaca<sup>2</sup>, Abdulkadir Gunduz<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Bergama Government Hospital, Department of Emergency Medicine, İzmir,

<sup>2</sup>Karadeniz Technical University, Faculty of Medicine, Department of Emergency Medicine, Trabzon, Turkey

#### Özet

Sefalosporinler beta laktam grubu antibiyotik olup günümüzde enfeksiyonların tedavisinde sıkılıkla kullanılmaktadır. Ayrıca kullanılmaya ilişkili olarak sefalosporinlerle ilgili alerjik reaksiyonlarda artış vardır. 31 yaşındaki kadın hasta acil servise yaygın kızarıklık, nefes darlığı, bulantı ve bilinc değişikliği ile başvurdu. Hastanın semptomları 500 mg sefuroksim aksetili oral aldıktan yarım saat sonra başlıdı. İlacı bağlı anafilaktik şok düşünüldü. Literatürde sefuroksim aksetil ile ilişkili 5 tane benzer vaka mevcuttur. Bu vaka sunumunda üst solunum yolu enfeksiyonu amacıyla reçetelenen sefuroksim aksetil içeren ilacın almısından sonra gerçekleşen anafilaktik şok vakası literatür tartışması ile ele alınmıştır.

#### Anahtar Kelimeler

Sefuroksim Aksetil; Sefalosporin; Anafilaktik Şok; İlaç Alerjisi

#### Abstract

Cephalosporins, a class of beta lactam antibiotics, are frequently employed today in the treatment of infection. There is also an associated increase in the frequency of cephalosporin-related allergic reactions. A 31-year-old woman presented to the emergency department with widespread rubor, nausea, shortness of breath and altered consciousness. The patient's symptoms had commenced half an hour after the oral ingestion of a drug containing 500 mg cefuroxime axetil. Drug-related anaphylactic shock was suspected. Literature contains five similar cases associated with cefuroxime axetil. This case report describes a case of anaphylactic shock developing after the ingestion of a drug containing cefuroxime axetil prescribed for upper respiratory tract infection, with a discussion of the relevant literature.

#### Keywords

Cefuroxime Axetil; Cephalosporin; Anaphylactic Shock; Drug Allergy

DOI: 10.4328/JCAM.1927

Received: 11.03.2014 Accepted: 25.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 394-5

Corresponding Author: Aynur Sahin, Bergama Government Hospital, Department of Emergency Medicine, İzmir, Turkey.

T: +90 2326312894 F: +90 4623775128 E-Mail: dr-aynursahin@hotmail.com

## Introduction

Beta lactam antibiotics, especially penicillin and cephalosporins, are frequently prescribed drugs. Many drug-related early hypersensitivity reactions are associated with these [1]. Cephalosporins have been shown to be responsible for some 15%-20% of severe allergic reactions [2]. Therapeutic use of cephalosporins is increasing, and a parallel increase in allergic reactions related to these drugs is also to be expected [3]. Cross reaction has been reported to play a role in allergy development. Cross reaction levels very from 0% to 68% among different cephalosporin generations. Less cross reaction is observed in 3rd generation cephalosporins compared to 1st and 2nd generations [4]. This case report discusses a picture of anaphylactic shock after use of cefuroxime axetil, a 2nd generation cephalosporin.

## Case Report

A 31-year-old woman presented to the emergency department with widespread rubor, nausea, shortness of breath and altered consciousness. Her history revealed no chronic disease and no history of medical allergy. On arrival her general condition was poor. She was lucid with a Glasgow Coma Score (GCS) of 14. Blood pressure could not be measured. Heart rate was 120/min, temperature 36.0 C and respiratory rate 20/min. No pathology was observed at ECG. The patient's history revealed that half an hour previously she had taken a drug containing 500 mg cefuroxime axetil prescribed for flu-like symptoms at an another center. Widespread allergic eruption and erythema in the entire body were observed at physical examination. Other system examinations were normal. Drug-related anaphylactic shock was suspected. Aggressive fluid therapy was initiated, and the patient was given 0.5 mg adrenalin IM and 80mg (1mg/kg) corticosteroid IV. Positive inotropic support was initiated when blood pressure did not improve after 20 min. General condition improved, regulation of blood pressure was established and the rubor resolved. The patient was kept under observation for 24 h and in the absence of any additional problem was discharged in a healthy condition.

## Discussion

Anaphylactic shock is the most serious form of anaphylaxis. As with other shock situations, it results in cardiovascular deficiency and insufficient blood circulation due to imbalance between tissue oxygen requirements and oxygen supply. Foodstuffs, insect bites and drugs are the most common causes of anaphylactic shock [5]. Allergic reactions may take the form of simple urticarial rash or severe anaphylaxis and anaphylactic shock. Drug-related allergic reactions are frequently seen. Allergy to penicillin is the most studied drug allergy and is regarded as a model in these [4].

Cross reaction between penicillin and cephalosporin families due to the similarity in their structures has created concern since these drugs began being used. Both have a ring structure containing a beta lactam ring and sulfur, responsible for their antibiotic effect. Cephalosporins have a 6-member dihydrothiazine ring, while the penicillin group has a 5-member thiazolidine ring. In vitro studies have confirmed an antigenic similarity between penicillin and some cephalosporins [6]. In those with penicillin allergy, the probability of a cross reaction between

early cephalosporins (1st and 2nd generation) with a side chain similar to that of penicillins is higher compared to later generations (3rd and 4th) with no similar chain [4].

Several anaphylactoid reactions developing in association with cephalosporins have been described in the literature, and there are a few case reports concerning anaphylaxis associated with cefuroxime, one of the cephalosporins. In one case report, Ilhan et al. discussed type 2 Kounis syndrome and anaphylactic shock developing after the use of oral cefuroxime. They reported that Kounis syndrome developed after oral cefuroxime use, the first such report apart from Kounis syndromes developing after IV and IM cefuroxime previously discussed in the literature [7]. Hasdenteufel et al. described a picture of anaphylactic shock developing after oral cefuroxime use, and reported that sensitivity to the methoxyimino group present in some beta lactam antibiotics had been determined after skin tests performed during follow-up, and that allergic reactions may develop following cross reaction between beta lactam antibiotics [8].

## Conclusion

This case report describes a picture of anaphylactic shock developing after oral cefuroxime use with no underlying allergic history or additional disease. Similar cephalosporin group antibiotic-related reactions have been reported, and this is the sixth case associated with cefuroxime axetil in the literature.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Renaudin JMC, Kanny G, Codreanu F, Beaudouin E, Moneret-Vautrin DA. Severe drug-induced anaphylaxis: survey of case reports by allergy vigilance network. *J Allergy Clin Immunol* 2007;119:36.
2. Kanny G, Guenard L, Demoly P, Ponvert C, Grand J, Gallen C, et al. Severe drug allergy: the first 100 cases declared to Allergy Vigilance Network. *J Allergy Clin Immunol* 2005;115:83.
3. McCaig L, Hughes JM. Trends in antimicrobial drug prescribing among office-based physicians in the United States. *JAMA* 1995;273:214-9.
4. Atanaskovic-Markovic M, Velickovic TC, Gavrovic-Jankulovic M, Vuckovic O, Nestorovic B. Immediate allergic reaction to cephalosporins and penicillins and their cross-reactivity in children. *Pediatr Allergy Immunol* 2005;16:341-7.
5. De Bisschop M, Bellou A. Anaphylaxis. *Curr Opin Crit Care* 2012, 18:308-17.
6. Goodman EJ, Morgan MJ, Johnson PA, Nichols BA, Denk N, Gold BB. Cephalosporins can be given to penicillin-allergic patients who do not exhibit an anaphylactic response. *J Clin Anesth*. 2001;13:561-4.
7. Ilhan E, Güvenç TS, Poyraz E, Ayhan E, Soylu O. Kounis Syndrome secondary to cefuroxime axetil use in an asthmatic patient. *International Journal of Cardiology* 2009;137:67-9.
8. Hasdenteufel F, Luyasu S, Renaudin JM, Trechot P, Kanny G. Anaphylactic Shock Associated with Cefuroxime Axetil: Structure-Activity Relationships. *Ann Pharmacother* 2007;41:1069-72.

## How to cite this article:

Sahin A, İmamoğlu M, Özcan A, Karaca Y, Gunduz A. Anaphylactic Shock Developing in Association with Cefuroxime Axetil Use. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 394-5.



## Aripiprazole Augmentation in Childhood Obsessive-Compulsive Disorder: Three Case Reports

### Çocukluk Çağı Obsesif Kompulsif Bozuklukta Aripiprazol Güçlendirme Tedavisi: Üç Olgu Sunumu

Pediatrik OKB'de Aripiprazol Güçlendirme Tedavisi / Aripiprazole Augmentation in Childhood OCD

Murat Yüce, Koray Karabekiroğlu, Göçce Nur Say, Filiz Uçar  
Ondokuz Mayıs Üniversitesi Tıp Fakültesi Çocuk ve Ergen Psikiyatrisi Anabilim Dalı, Samsun, Türkiye

16-20 Nisan 2014 tarihinde Antalya, Türkiye'de yapılacak olan 6. Uluslararası Psikofarmakoloji Kongresi @ 2. Uluslararası Çocuk ve Ergen Psikofarmakolojisi Sempozyumu'nda poster özeti şeklinde sunulacaktır.

#### Özet

Aripiprazol üçüncü kuşak bir antipsikotik olup, parsiyel dopamin agonisti olarak etkinlik gösterir. Yaygın gelişimsel bozukluk, şizofreni ve bipolar bozukluğu olan çocuk ve ergenlerde aripiprazol kullanımı giderek artmaktadır. Bu yazında iki farklı seçici serotonin geri alma inhibitörü tedavisine yanıt alınamayan ve tedaviye aripiprazol eklendikten sonra belirtileri belirgin olarak azalan üç pediatrik obsesif kompulsif bozukluk (OKB) olgusu sunulmuştur. Aripiprazol pediatrik OKB güçlendirme tedavisinde etkili ve güvenilir bir ajan olarak gözükmemektedir. Ancak çocuk ve ergenlerde OKB tedavisinde aripiprazol tedavisinin etkinliğini ve güvenilirliğini ortaya koyacak daha ileri çalışmalarla ihtiyaç vardır.

#### Anahtar Kelimeler

Obsesif Kompulsif Bozukluk; Aripiprazol; Güçlendirme Tedavisi; Çocuk

#### Abstract

Aripiprazole is a third generation antipsychotic that has a partial dopamine agonistic activity. There is an increasing usage of aripiprazole in children and adolescents with schizophrenia, pervasive developmental disorders, and bipolar disorders. In these presentation, we aimed to present three pediatric obsessive-compulsive disorder (OCD) cases who were resistant to two different selective serotonin reuptake inhibitor treatments and prescribed aripiprazole for augmentation therapy. The results of these three cases suggest that aripiprazole is an effective and safe alternative as augmentation for childhood OCD treatment. However, to investigate the efficacy and safety of aripiprazole in childhood OCD, randomized controlled treatment studies are needed.

#### Keywords

Obsessive-Compulsive Disorder; Aripiprazole; Augmentation; Child

DOI: 10.4328/JCAM.2374

Received: 27.02.2014 Accepted: 26.03.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 396-8

Corresponding Author: Murat Yüce, Ondokuz Mayıs Üniversitesi Tıp Fakültesi Çocuk ve Ergen Psikiyatrisi Anabilim Dalı, Samsun, Türkiye.

GSM: +905058230653 E-Mail: muryuce@yahoo.com

## Giriş

Obsesif kompulsif bozuklukta (OKB) etkinliği kanıtlanmış ilk basamak tedavi Seçici Serotonin Gerialım İnhibitörleri (SSRI) ve bilişsel davranışçı terapilerdir [1]. Ancak çoğu çocuk hastada her iki tedavi yönteminde de semptomlar tam olarak ortadan kalkmaz. SSRI tedavisinden yeterince fayda görmeyen hastalarda öncelikle SSRI dozu yükseltilebilir sonra başka bir SSRI tedavisine geçilebilir. Tedavi etkinliği yine yetersiz kalırsa başka bir psikofarmakolojik ajanla güçlendirme yapılabilir [2]. İki farklı SSRI kullanımından fayda görmeyen hastalarda güçlendirme tedavisine geçilmesi önerilmektedir. OKB güçlendirme tedavisinde özellikle atipik antipsikotiklerden risperidon, olanzapin ve ketiapin kullanılabilir. Farmakolojik güçlendirme stratejileri arasında, adjuvan antipsikotik ilaçlar yetişkinlerde en fazla kullanılan ajanlardır [1-2]. Güncel bilgilerimiz dahilinde, çocuk ve ergenlerde dirençli OKB tedavisinde güçlendirme tedavileri konusunda yapılmış kontrollü çalışma bulunmamaktır. Bununla birlikte çocuk OKB hastalarında da SSRI tedavisinde yetersiz yanıt olduğunda, klinik uygulamada atipik antipsikotikler güçlendirme amaçlı olarak sık bir şekilde kullanılmaktadır. Aripiprazol parsiyel dopamin ve serotonin 1A reseptör agonisti aktivitesi ile etkisini gösteren ve diğer atipik antipsikotikler ile karşılaşıldığında nispeten daha düşük bir yan etki profiline sahip bir atipik antipsikotik ilaçtır [3]. Günümüzde tedaviye dirençli pediatrik OKB hastalarında aripiprazol kullanımı ile ilgili yapılmış sınırlı sayıda çalışma vardır [4-5].

Bu bilgiler ışığında çocuklarda da aripiprazolun dirençli OKB olgularında faydalı olabileceği beklenmektedir. Bu yazda SSRI tedavisinden fayda görmeyen pediatrik OKB olgularında aripiprazol güçlendirme tedavisi eklenen üç olgunun sunulması amaçlanmıştır.

## Olgu Sunumu 1

17 yaşında erkek hasta polikliniğimize “dokunma takıntıları” nedeniyle başvurmuştur. Şikayetlerinin yaklaşık bir sene önce, “konuştuğu kişinin kollarına dokunmak isteme”, şeklinde başladığı öğrenilmiştir. Dokunma takıntılarının başlamasından birkaç ay sonra, “mikrop bulaşabileceğim düşünceleri” nedeniyle ellerini çok sık yıkama şikayetleri başlamıştır. İlk başvurusundan birkaç ay önce de sayma kompulsyonları eklenmiştir.

İlk değerlendirmede olguya OKB tanısı konularak fluoksetin 20 mg/gün başlanmış ve tedavi kademeli olarak 60 mg/gün'e çıkmıştır. Semptomlarında yeterli bir değişiklik olmayan hastanın fluoksetin tedavisi kesilmiş, 50 mg/gün sertralin başlanmıştır. Sertralin dozu semptomlarda istenen düzeyde düzelleme olmamıştır. Hastanın sayma ve dokunma obsesyon ve kompulsyonlarında belirgin düzelleme olmamış, öte yandan temizlik davranışlarında artış olmuştur (Ç-YBOCS skoru: 30). Aripiprazol başlanarak kademeli olarak 20 mg/gün'e çıkmıştır. Aripiprazol tedavisinin birinci ayında belirtileri belirgin olarak düzelmış, dokunma ve sayma kompulsyonları ortadan kalkmış, yıkama oldukça azalmıştır. İlk başvurusunda Ç-YBOCS skoru 33 olan hastanın aripiprazol tedavisi sonrasında 14 olarak bulunmuştur. Hastanın tedavisinin 4. ayında sertralin 200 mg/gün ve aripiprazol 20 mg/gün ile herhangi bir belirtisinin kalmadığı ve işlevselliliğinin tam olarak geri döndüğü gözlenmiştir. Aripiprazol tedavisinin ilk iki haftasında hastanın “başağrısı, halsizlik ve uykusuzluk”

yakınması olmuş tedavinin 4. haftasında bu yan etkiler ortadan kalkmıştır.

## Olgu Sunumu 2

9 yaşında kız hasta polikliniğimize yaklaşık bir yıldır devam eden “kirlendiği düşüncesiyle sık sık iç çamaşırını değiştirmeye”, “sık sık ve uzun süre el yıkama” yakınmalarıyla başvurmuştur. Yapılan görüşmede hastanın “sürekli çamaşırına kaka bulaşmış olabileceği” düşüncesinin aklına geldiği, bunun için sık sık çamaşırını kontrol ettiği öğrenilmiştir. OKB tanısıyla (Ç-YBOCS skoru: 30) fluoksetin 20 mg/gün başlanmış, kademeli olarak fluoksetin dozu 60 mg/gün'e çıkmıştır. Dördüncü ayın sonunda şikayetlerinde düzelleme olmayan hastanın fluoksetin tedavisi kesilmiş, sertralin 50 mg/gün başlanmıştır. Şikayetlerinde değişiklik olmayan hastanın sertralin dozu kademeli olarak 150 mg/gün'e çıkmış ve tedaviye aripiprazol 15 mg/gün eklenmiştir (Ç-YBOCS skoru: 28). Aripiprazol tedavisi sonrasında hastada “baş dönmesi ve uykuya dalmakta güçlük” yan etkileri ortaya çıkmış ve bu yan etkiler birinci ayın sonunda ortada kalkmıştır. Aripiprazol eklenmesinden bir ay sonra belirtilerinde belirgin bir azalma olan hasta (Ç-YBOCS skoru: 5) 6 aydır sertralin 150 mg/gün ve aripiprazol 15 mg/gün ile takip edilmektedir.

## Olgu Sunumu 3

16 yaşında kız hasta polikliniğimize “Külötuma idrar bulaşmış mıdır?”, “Tuvaletimi yaparken pantolonuma idrar/kaka sıçrar mı?” şeklinde bulaşma içerikli obsesyonlar ve “tuvalete girerken tamamen soyunarak girme”, “tuvaletten sonra banyoda vücudunun alt kısmını yıkama” kompulsyonları nedeniyle başvurdu. Annesi, “bulaşma korkusu nedeniyle okulda tuvalete gidemediğini”, “bu nedenle bazı günler okuldan erken çıkararak eve geldiğini” belirtmiştir. Hastaya OKB tanısı konularak (Ç-YBOCS skoru: 35) sertralin 50 mg/gün başlanmıştır. Doz kademeli olarak 200 mg/gün'e çıkmıştır. Bu dozda hastanın OKB semptomlarında düzelleme olmadığı düşünülmüş (Ç-YBOCS skoru: 30) sertralin yerine paroksetin 20 mg/gün başlanmıştır. İzlemde paroksetin dozu 40 mg/gün'e çıkmış şikayetlerinde değişiklik olmamıştır (Ç-YBOCS skoru: 26) olanzapin 5 mg/gün eklenmiştir. Hasta olanzapin tedavisinin “uyku hali yaptığı” söyleyerek kullanmak istememiştir. Olanzapin yerine hastaya aripiprazol 15 mg/gün başlanmıştır (Ç-YBOCS skoru: 26). Aripiprazol eklendikten bir ay sonraki görüşmede hastanın belirtilerinde belirgin düzelleme olduğu anlaşılmıştır (Ç-YBOCS skoru: 6). Hasta yedi aydır paroksetin 40 mg/gün ve aripiprazol 15 mg/gün ile takip edilmektedir.

## Tartışma

SSRI tedavisi OKB tedavisinde etkinliği kanıtlanmış birinci basamak tedavi yöntemidir Tedavide SSRI'lara yeterli yanıt alınmazsa güçlendirme tedavilerine geçilebilir. SSRI tedavisinin sonuç alınamayan hastalarda klonipramin kullanılabilir veya antipsikotikler, lityum, klonazepam, buspiron, monoamin oksidaz inhibitörleri, duygudurum düzenleyicileri ile güçlendirme tedavisi uygulanabilir [1,2,6]. Bununla birlikte, çocuk ve ergenlerde güçlendirme tedavilerinin etkinliği konusunda bilinenler kısıtlıdır [2]. SSRI'lara yanıt alınamayan olgularda erişkinlerdeki gibi tedaviye antipsikotik eklenmesi çocukların da sık başvurulan bir yöntemdir [2,6].

Aripiprazol, hiperdopaminerjik koşullarda D2 dopamin reseptör antagonisti olarak etki eden, hipodopaminerjik koşullarda agonist özellikler gösteren parsiyel dopamin agonisti olan üçüncü kuşak antipsikotiktir. Bununla birlikte, 5-HT1A reseptörleri üzerinde parsiyel agonist ve 5HT2A reseptörleri üzerinde antagonist olarak etki eder [3]. SSRI tedavisine yanıt vermeyen erişkin OKB hastalarında aripiprazol güçlendirme tedavisinin faydalı olduğunu bildiren çalışmalar vardır [7,8]. Aripiprazolun çocuk ve ergenlerde OKB tedavisindeki etkinliği kısıtlı sayıda olgu sunumlarında bildirilmiştir [4,5].

OKB patogenezinde serotonerjik yolaklar kadar dopaminerjik yolakların da rol oynadığı ve bu dengenin bozulması ile hastalığın meydana geldiği ileri sürülmektedir [6,8]. OKB nörobiyolojisinde dopamin ve serotonin sistemlerinde bozukluk olduğu göz önünde bulundurulduğunda D2 ve 5HT1A reseptörleri üzerinde parsiyel agonistik ve 5HT2A reseptörü üzerinde antagonistik etkisi bulunan aripiprazolun OKB tedavisindeki etkinliği açıklanabilir.

Bilgimiz dahilinde ilk olarak 2005 yılında, Connor ve ark. 8 yetişkin OKB hastasından oluşan bir vaka serisinde aripiprazolun obsesif-kompulsif belirtiler üzerinde etkili olduğunu bildirmiştir [7]. Aripiprazolun erişkin hastalarda tedaviye dirençli OKB olgularında faydalı olduğunu bildiren birkaç vaka bildirimi bulunmaktadır [8,9,10]. SSRI tedavisine yanıt vermeyen 12 erişkin hastanın dahil edildiği (8 hasta çalışmayı tamamlamış) yapılan açık uçlu bir çalışmada aripiprazolun etkili olduğu bildirilmiştir [11].

Sonuç olarak, bu olgu serisinde, iki farklı SSRI tedavisine yanıt alınamayan pediatrik OKB olgularında aripiprazolun tedaviye eklenmesinin, obsesif-kompulsif belirtiler üzerinde oldukça olumlu bir etki gösterdiği görülmüştür. Bu nedenle aripiprazol tedaviye dirençli çocuk ve ergen OKB hastalarında güçlendirme tedavisinde etkili bir ilaç olarak düşünülebilir. Ancak çocuk ve ergenlerde OKB tedavisinde aripiprazol tedavisinin etkinliğini ve güvenilirliğini ortaya koyacak daha ileri çalışmalarla ihtiyaç vardır.

#### **Çıkar Çakışıması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çakışıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Storch EA, Merlo LJ. Treatment of the patient with obsessive-compulsive disorder. *J Fam Practice* 2006;55:329-33.
2. Thomsen PH. Obsessive-compulsive disorder: pharmacological treatment. *Eur Child Adolesc Psychiatry* 2000; 9 (Suppl 1):76-84.
3. Burris KD, Molski TF, Xu C, Ryan E, Tottori K, Kikuchi T, Yocca FD, Molinoff PB. Aripiprazole, a novel antipsychotic, is a high-affinity partial agonist at human dopamine D2 receptors. *J Pharmacol Exp Ther* 2002;302(1):381-9.
4. Storch EA, Lehmkuhl H, Geffken GR, Touchton A, Murphy TK. Aripiprazole augmentation of incomplete treatment response in an adolescent male with obsessive-compulsive disorder. *Depress Anxiety* 2008;25(2):172-4.
5. Ulay HT. [Aripiprazole for Obsessive Compulsive disorder In Children and Adolescents: Case Reports]. *J. Turk J Child Adolesc Ment Health* 2010;17(2):91-6.
6. Bloch MH, Landeros-Weisenberger A, Kelmendi B, Coric V, Bracken MB, Leckman JF. A systematic review: antipsychotic augmentation with treatment refractory obsessive-compulsive disorder. *Mol Psychiatry* 2006;11(7):622-32.
7. Connor KM, Payne VM, Gadde KM, Zhang W, Davidson JR. The use of aripiprazole in obsessive-compulsive disorder: preliminary observations in 8 patients. *J Clin Psychiatry* 2005;66(1):49-51.
8. Pessina E, Albert U, Bogetto F, Maina G. Aripiprazole augmentation of serotonin reuptake inhibitors in treatment-resistant obsessive-compulsive disorder: a 12-week open-label preliminary study. *Int Clin Psychopharmacol* 2009;24(5):265-9.
9. Friedman S, Abdallah TA, Oumaya M, Rouillon F, Guelfi JD. Aripiprazole augmentation of clomipramine-refractory obsessive-compulsive disorder. *J Clin Psychiatry* 2007;68(6):972-3.
10. Sarkar R, Klein J, Krüger S. Aripiprazole augmentation in treatment-refractory

obsessive-compulsive disorder. *Psychopharmacology (Berl)* 2008;197(4):687-8.

11. da Rocha FF, Correa H. Successful augmentation with aripiprazole in clomipramine-refractory obsessive-compulsive disorder. *Prog Neuropsychopharmacol Biol Psychiatry* 2007;31(7):1550-1.

#### **How to cite this article:**

Yüce M, Karabekiroğlu K, Say GN, Uçar F. Aripiprazole Augmentation in Childhood Obsessive-Compulsive Disorder: Three Case Reports. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 396-8.



## An Unusual Complication of Twin to Twin Transfusion Intrauterine Gangrene of the Lower Extremities

### İkizden İkize Transfüzyonun Sıradışı Bir Komplikasyonu Alt Ekstremitelerin İnteruterin Gangreni

Alt Ekstremitelerin İnteruterin Gangreni / Intrauterine Gangrene of the Lower Extremities

Mehmet Fatih Korkmaz<sup>1</sup>, Ramazan Ozdemir<sup>2</sup>, Muharrem Ak<sup>3</sup>, Ahmet Karadag<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Inonu University, Faculty of Medicine, Dept. of Orthopedics, Malatya, Turkey,

<sup>2</sup>Inonu University, Faculty of Medicine, Division of Neonatology, Malatya, Turkey,

<sup>3</sup>University of Illinois at Chicago, Dept. of Medical Education, USA

#### Özet

Yenidoğanın ekstremitelerde gangreni doğumda son derece nadir bir durumdur. Biz okuyucular ile ikizden ikize transfüzyonun beklenmedik bir komplikasyonunu, intrauterin polisitemi ve hiperviskositeli sonucu olusabilecek alt ekstremitelerin gangrenini, paylaşmak istedik.

#### Anahtar Kelimeler

Intrauterin Transfüzyon; Gangren; Amputasyon

#### Abstract

Gangrene of the extremities in the newborn is extremely rare condition at birth. We would like to share with the readers an unexpected complication of twin to twin transfusion, gangrene of the lower extremities which may occur as a result of inutero polycythemia and hyperviscosity.

#### Keywords

Intrauterine Transfusion; Gangrene; Amputation

DOI: 10.4328/JCAM.2396

Received: 10.03.2014 Accepted: 27.03.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 399-400

Corresponding Author: Mehmet Fatih Korkmaz, Department of Orthopedics and Traumatology, Inonu University School of Medicine, Turgut Ozal Medical Center, 44280, Malatya, Turkey. T: +90 4223410660 F: +90 4223410736 E-Mail: fatih.korkmaz@inonu.edu.tr

## Introduction

Gangrene of the extremities in the newborn is extremely rare condition at birth. Less than 100 cases have been reported world-wide. Its etiology and pathogenesis are not clear in many cases. The pathogenesis of intrauterine gangrene can be divided into intrauterine compression or thrombo-embolic phenomena.<sup>[1]</sup> The compression is generally caused by uterine anomalies, fetal malpresentation with limb prolapse, oligohydramnios, amniotic bands, or umbilical cord entanglement.<sup>[1]</sup> Intrauterine fetal ischemia caused by thrombosis or emboli has been linked to maternal diabetes, preterm delivery, dehydration, polycythaemia, and twin-to-twin transfusion syndrome.<sup>[2]</sup> Only 13 of the reported cases of neonatal gangrene have described established areas of necrosis of an extremity noted upon delivery, so-called intrauterine or congenital ischemic necrosis.<sup>[3-4]</sup> Of these, only 4 cases involve the lower extremity.<sup>[2,4]</sup> We report a newborn patient with congenital bilateral in utero lower limb gangrene due to twin-twin transfusion.

## Case Report

A 42-year-old healthy woman (gravida 9, para 9) was seen at doctors office with complaint of vaginal bleeding at the 27th week of pregnancy. Emergency c-section was performed due to low biophysic score. Twin A was a baby male with a birth weight of 1320 g. The Apgar scores were 7 at 1st minute and 7 at 5th minutes. Twin B was born with 615 gm did not respond the resuscitation efforts and died because of severe respiratory failure. The twin A was intubated at birth and treated for respiratory distress syndrome. At birth, bilateral lower extremity demonstrated marked atrophy and dense blackened necrosis from the superior pole of the patella to the tips of all 5 toes (Fig A). There was no evidence of a congenital amniotic band or evidence suggesting that the extremity had been encircled by the umbilical cord. Higher laboratory results polycytemia and hyper viscosity syndrome indicated (Hb: 25, Hct: 76%, WBC: 13.200, PLT: 342.000) an immediate partial exchange transfusion has been performed.

The patient was referred our center for the amputation after



Fig; Clinical photograph of the lower extremity of the patient at birth (A) and discharged (B).

the exchange where we evaluated unremarkable hypercoagulable state evidenced by normal bilateral lower extremity radiography. The infant was hemodynamically stabilized and prophylactically treated with broad spectrum antibiotics. Bilateral knee disarticulation was performed 12 hours after birth due evolving sepsis and a clearly demarcated limb, with no complications. The distal femoral segment was retained, although the cartilage at the distal femoral condyles appeared grayish with questionable viability.

He was hospitalized for 72 days and discharged from the hos-

pital with 2390 gram. The patient was seen after 90 days with normal physical examination and amputated region was with no complication (Fig B).

## Discussion

Twin-twin transfusion syndrome presents at 18 to 26 weeks' gestation with marked hydramnios in one sac and a stuck twin with severe oligohydramnios in the other. The natural history is for premature labor to occur, often in association with rupture of the membranes, with almost certain neonatal death from prematurity combined with congestive heart failure or extreme intrauterine growth retardation.

The biochemical balance of the hemostatic system of the neonate is profoundly different from that of an adult. The composition of the hemostatic system of an infant does not resemble that of an adult until approximately 6 months of age.<sup>[5]</sup> The functional immaturity of the neonate's hemostatic system favors a procoagulant state. Concentrations of antithrombin III, heparin cofactor, protein C, protein S, and plasminogen are reduced by more than 50% of reference adult values.<sup>[6-7]</sup>

Twin-twin transfusion syndrome results in a relative hypervolemia in the recipient twin, triggering a diuresis response that leads to a polyhydramnios sac, increased intrauterine pressure, and decreased fetal motion.<sup>[4]</sup> Polycytemia and the resultant hyperviscosity in the recipient twin are known predisposing risk factors for the development of arterial thrombosis.<sup>[2,4]</sup>

The diagnosis of twin-twin transfusion was confirmed by severe polycytemia and hypervolemia in laboratory work up, heavy growth retardation determined by weighing and immediate resuscitation need soon after delivery.

A literature review of reported cases suggests that a significant number of the neonates with intrauterine gangrene were born prematurely. It is impossible to determine whether their premature births were a result of the toxic effects of the gangrenous process involving the extremity in utero or whether other factors were involved. We would like to share with the readers an unexpected complication of twin to twin transfusion, gangrene of the lower extremities which may occur as a result of inutero polycytemia and hyperviscosity.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Arshad A, McCarthy MJ. Management of limb ischaemia in the neonate and infant. *Eur J Vasc Endovasc Surg* 2009;38:61-5.
2. Nagai MK, Littleton AG, Gabos PG. Intrauterine gangrene of the lower extremity in the newborn: a report of two cases. *J Pediatr Orthop* 2007;27:499-503.
3. Carr MM, al-Qattan M, Clarke HM. Extremity gangrene in utero. *J Hand Surg Br* 1996;21:652-5.
4. Dawkins RR, Marshall TL, Rogers MS. Prenatal gangrene in association with twin-twin transfusion syndrome. *Am J Obstet Gynecol* 1995;172:1055-7.
5. Chalmers EA. Neonatal coagulation problems. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed* 2004;89:F475-8.
6. Andrew M, Paes B, Milner R, Johnston M, Mitchell L, Tolleson DM, Castle V, Powers P. Development of the human coagulation system in the healthy premature infant. *Blood* 1988;72:1651-7.
7. Andrew M, Paes B, Johnston M. Development of the hemostatic system in the neonate and young infant. *Am J Pediatr Hematol Oncol* 1990;12:95-104.

## How to cite this article:

Korkmaz MF, Ozdemir R, Ak M, Karadag A. An Unusual Complication of Twin to Twin Transfusion Intrauterine Gangrene of the Lower Extremities. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 399-400.



## Asymptomatic Left Atrial Myxoma in Elderly Patient: A Case Report

### Yaşlı Hastada Asemptomatik Sol Atrial Miksoma: Olgu Sunumu

Asemptomatik Sol Atrial Miksoma / Asymptomatic Left Atrial Myxoma

Seyhan Yilmaz<sup>1</sup>, Serdar Gunaydin<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Hitit University, Corum Education and Research Hospital, Department of Cardiovascular Surgery, Corum,

<sup>2</sup>Medline Hospital, Department of Cardiovascular Surgery, Eskisehir, Turkey

#### Özet

Kardiyak tümörlerin yaklaşık %75'i benign olup yaklaşık %50'sini miksomalar oluşturmaktadır. Miksomalar kadınlarında daha sıklır ve genellikle hayatın üçüncü ve altıncı dekadalılarında gözlenirler. En sık görülen semptomu obstrüksiyona bağlı solunum zorluğuudur. Kardiyak miksomaların cerrahisinde ana prensip kardiyopulmoner bypass eşliğinde tümörün minimal manipülasyonla ve parçalanma olmadan tam eksizyonudur. Bu olgu sunumu, son yedi yıl içerisinde farklı zamanlarda genel anestezi eşliğinde iki kez cerrahi geçirmiş ve kardiyak miksoma tanısı konulamamış, yetmiş bir yaşında, asemptomatik kardiyak miksomali yaşı bir hastayı bildirmektedir.

#### Anahtar Kelimeler

Kalp Tümörleri; Miksoma; Atrial Septal Defekt; Siyanoz; Anjiografi

#### Abstract

Approximately 75% of cardiac tumors are benign and approximately 50% are constituted of myxomas. Myxomas are more common among women, and generally appear between the third and sixth decade of life. The most common symptom of myxomas is respiratory distress associated with obstruction. The main goal in the surgery of cardiac myxomas is the full excision of the tumor with minimal manipulation and disruption/fragmentation together with the aid of a cardio-pulmonary bypass. This case report is reported a seventy years old patient with asymptomatic cardiac myxoma whom undergoing surgery with general anesthesia twice at different times and undiagnosed cardiac myxoma in past seven years.

#### Keywords

Cardiac Tumor; Myxoma; Atrial Septal Defect; Cyanosis; Angiography

DOI: 10.4328/JCAM.2410

Received: 17.03.2014 Accepted: 31.03.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 401-3

Corresponding Author: Seyhan Yilmaz, Çamlık Sok. No:2, Çorum, Türkiye.

GSM: +905336838186 E-Mail: drlabarna@gmail.com

## Introduction

The incidence of primary cardiac tumors, which are uncommon in all age groups, is 1.7-10 in 100,000 within the population. Approximately 75% of these tumors are benign, and approximately 50% are constituted of myxomas.<sup>[1]</sup> Myxomas are more common among women, and generally appear between the third and sixth decade of life.<sup>[2]</sup> Myxomas are pathologies that may have fatal outcomes due to their associated complications, and most patients with this condition experience embolization, cardiac symptoms associated with obstruction, and structural symptoms.<sup>[1,3]</sup> The most common symptom is respiratory distress associated with obstruction. The clinical features of myxomas varies according to tumor localization, size and motility, and tumors are generally observed on the left side of the heart (75% in the left atrium).<sup>[3,4]</sup> Transthoracic and transesophageal echocardiography tests are the most accurate, reliable and commonly used diagnostic tools, and provide important information regarding the imaging and characteristics of the tumor. The first surgical excision of a myxoma was reported by Bahnson in 1952. The main goal in the surgery of cardiac myxomas is the full excision of the tumor with minimal manipulation and disruption/fragmentation together with the aid of a cardiopulmonary bypass.

## Case Report

71-year-old female patient admitted to the hospital with complaints one times fainting temporarily and dizziness at the last two weeks of sometimes. Connective tissue disease, cerebrovascular disease, malignancy, rheumatic fever, radiation exposure, renal failure, metabolic disorders, peripheral embolism and chest trauma haven't be at resume questioning of patient and there isn't palpitation, chest pain, weight loss and respiratory distress story. In the last seven years, patient has a history of two operations because of the bile duct stone and ileus that made under general anesthesia and examinations and preparation tests conducted before these operations had not received the diagnosis of cardiac myxoma. At physical examination, blood pressure was 110/70 mmHg, pulse was 78/sec, fever was 36.6 degree and respiratory rate 20/min respectively. On inspection there were no examination findings other than hemorrhagic rash outside of the chest wall and abdominal operation scars. Evident on palpation of peripheral pulses. There was no sound except for the pathological murmur apical 1-2/6 presistolik at auscultation. Chest X-ray showed an increase in vascularity in the lungs. Electrocardiography were in sinus rhythm. There was not the result of abnormal hematology and biochemical tests (WBC: 5300, CRP: 0.6 mg / dl and Sedimentation: 22/ hour). Echocardiography were used in preoperative diagnosis. In the left atrium a mass was found with transesophageal echocardiography after transthoracic echocardiography which depending on the size 31x22mm, connected interatrial septum with a handle about 1 cm length and showing calcifications (Figure 1). Ejection fraction of patient was 67% with echocardiography. Due to the advanced aged patient coronary angiography was built and there was no significant coronary artery disease. The patient was operated under general anesthesia with a midline sternotomy, cardiopulmonary bypass has been entered following ascending aorta and bicaval cannulation. Moderate



Figure 1. Transesophageal echocardiography view of the left atrial myxoma.

hypothermia and cardiac arrest was achieved with blood cardioplegia. The left and right atria were opened and followed yellowish gelatinous mass in the left atrium, stem and base of origin with the interatrial septum was excised. Interatrial septal defect was closed using a PTFE patch. After excision of the tumor mass the cardiac chambers were checked and due to absence of any mass, cardiac chambers were irrigated with cold saline over and over again. The mitral valve was found to be normal. The patient was not made an additional attempt. The histopathological examination of the excised mass which sized 50X40X30mm was built and is compatible with myxoma (Figure 2, 3). Postoperative period was uneventful and the patient was discharged on the fifth postoperative day. Patients were followed up without recurrence for a year without any problems.

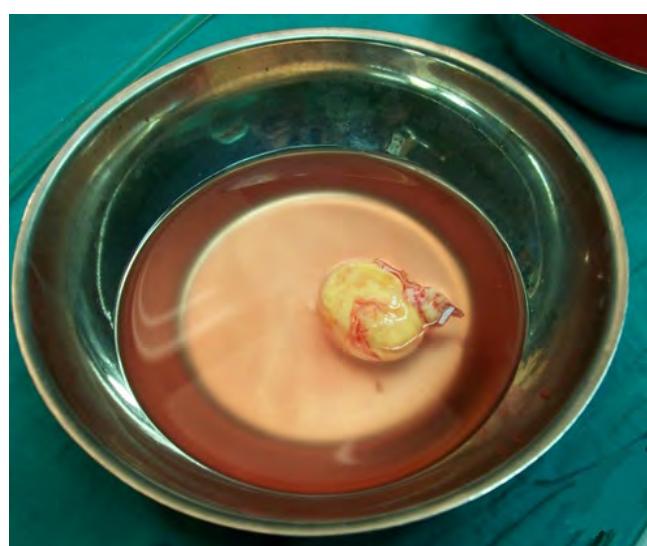


Figure 2. Surgical specimen of the resected mass; size 5x4 x 3 cm.

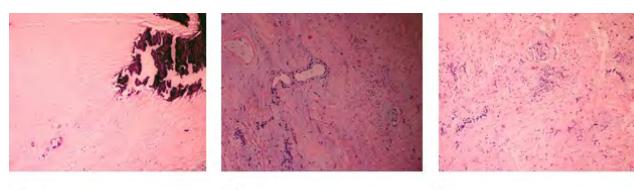


Figure 3. Histopathological specimen in the hematoxylin-eosin stain (magnification  $\times 100$ ) showing; myxoma cells, inflammation and calcification.

## Discussion

Cardiac myxomas are more common among women and between the ages of 30-60, and are frequently localized to the left atrium.[1,3] Our patient was a 70 years-old women with a left atrial myxoma rooted in the fossa ovalis of the interatrial septum. Histologically, myxomas are formed of polygonal myxoma cells and small capillary canals within a mucopolysaccharide-rich matrix.[3] However, the cellular structure of myxomas is still a matter of debate.[3] Histopathological tests of the tumor mass excised from our case demonstrated that the tumor had myxoma characteristics. Cardiac myxomas are the primary cardiac tumors with the most variable clinical symptoms; their major symptoms include complications associated with embolization, and hemodynamic complications secondary to the obstruction of blood flow into the chambers of the heart. Non-cardiac symptoms that are not associated with the tumor localization include constitutional symptoms such fever, weight loss, myalgia, erythematous eruptions and lethargy.[1,3] No embolic lesions were identified in our patient, and complaints of tachycardia and dyspnea were also absent. However, the patient had complaints of short-duration syncope attacks, myalgia, and erythematous eruptions. Auscultation of left atrial myxomas generally reveals auscultatory findings of mitral stenosis, which includes hardened primary heart sounds and diastolic murmur in the apical region.[3] Auscultatory findings indicative of mitral stenosis were also identified in our patient. The electrocardiography findings of myxomas are nonspecific, while telecardiography can identify and show generalized cardiomegaly, enlargement in the relevant heart chambers, and pulmonary congestion findings associated with pulmonary venous hypertension in the lungs.[3] Our patient had a sinus rhythm, as well as increased vascularity in the lungs. Nowadays, echocardiography represent the most commonly used and accurate diagnostic tool for the diagnosis of cardiac myxomas. Transesophageal echocardiography provides very useful information, and is superior to transthoracic echocardiography in fully demonstrating the relationship between the tumor and the cavity wall, and also for the planning of surgery. Our patient underwent two surgeries under general anesthesia on two different occasions within the past seven years; however, her cardiac myxoma was not identified during the preoperative physical examinations and preparatory tests that were performed for these surgeries. Definite diagnosis in our patient was established with the aid of transesophageal echocardiography performed after transthoracic echocardiography. In addition, as our patient was of advanced age, coronary angiography was also performed to evaluate the coronary arteries. Myxomas are generally benign and rarely metastasize. No metastasis was identified in any of the tests performed on our case.[5] Myxomas that are not treated with surgery generally have poor mid and long-term prognosis. They must hence be removed after diagnosis, even if they are asymptomatic. Surgical excision is the most effective treatment method, and provides fairly good outcomes.[5,6] In our case with left atrial myxoma, the tumor was excised as a whole and without fragmenting, along with the endocardial portion to which the tumor was attached, by using biatrial incision. The resulting atrial septal defect was closed with a patch. No mortality developed in our case. Our case was followed for

a period 12 months with periodic echocardiographies, and no recurrence of myxoma was identified during this period.

## Conclusion

Cardiac myxomas are generally benign tumors, with surgical excision being the most effective method for their treatment. The majority of patients who are operated following diagnosis with echocardiography continue their lives asymptotically. Against the possibility of recurrence, patients should undergo periodic echocardiography controls at certain time intervals.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Keçelgil HT, Demir Z, Kolbakır F, Demirağ MK, Akar H. [Cardiac myxoma and surgical treatment] Kardiyak miksoma ve cerrahi tedavisi. Türk Göğüs Kalp Damar Cerr Derg 1999;7:210-6.
2. A Özén, Ü Kervan, U Ünal, AK İrdem, E Yücel. Case Report of a Left Atrial Myxoma Associated with Carney's Syndrome. Journal of Clinical and Analytical Medicine 2013. DOI: 10.4328/JCAM.1693
3. Şirin H. [Cardiac Tumors] Kalp Tümörleri. In: Duran E.Kalp ve Damar Cerrahisi, Cilt 2, 2004; Çapa Tıp Kitabevi ve Yayıncılık, Edirne, 1751-1764
4. Kaplan M., Demirtaş MM, Çimen S, Gerçekoğlu H, Yapıcı F, Özler A. [Cardiac myxoma: ] Kardiyak Miksoma: 45 Olguluk Deneyim. Turkish J Thorac Cardiovasc Surg 2002;10:11-14
5. Kirklin JW, Barratt-Boyes. Cardiac tumor. In: Kirklin JW, Barratt-Boyes BG. Cardiac Surgery, Vol 2, 1993; 2nd edition, New York, Churchill Livingstone, 1635-1654.
6. Nurözler F, Tandoğan A, Birol Y. Huge Left Atrial Myxoma With Minimal Symptoms: Case Report. Turkish J Thorac Cardiovasc Surg 2003;11: 52-53.

## How to cite this article:

Yilmaz S, Gunaydin S. Asymptomatic Left Atrial Myxoma in Elderly Patient: A Case Report. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 401-3.



## Total Knee Arthroplasty in a Patient with Neglected Congenital Patellar Dislocation

### İhmal Edilmiş Konjenital Patella Çıkığında Total Diz Protezi

Neglected Congenital Patellar Dislocation / İhmal Edilmiş Konjenital Patella Çıkığı

Emrah Kovalak, Aican Barış, Enes Kanay, Abdullah Obut, Tolga Tüzünler  
TC Sağlık Bakanlığı İstanbul Eğitim ve Araştırma Hastanesi Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, İstanbul, Türkiye

4. Ortopedi ve Travmatoloji İstanbul Buluşması 2014'de poster bildiri olarak kabul edilmiştir.

#### Özet

Konjenital patella çıkıştı nadir bir deformite olup, geç dönemde başvuru sebebi genellikle diz ekleminin artrozudur. Total diz artroplastisi de (TDA) bu nadir patologinin tedavi seçeneğidir. Literatürde total diz protezi ile tedavi edilmiş konjenital patella çıkıştı ile gonartroz birlilikliği ile ilgili az sayıda bildirim olmakla beraber bunlar arasında farklılıklar bulunmaktadır. Bu çalışmada 8 yıldır sol diz ağrısı olup son 2 yıl içinde daha da artan konjenital patella çıkıştı ile gonartroz birlilikliği olan ve patella yüzey değişimi yapılmadan bağ koruyan total diz protezi ile proksimal ve distal patella düzilim cerrahisi yapılan 55 yaşında bayan hasta sunulmuştur. Ameliyat sonrası birinci yıl sonunda, hareket açığı 5°-100° idi. Patellar instabilitate ve atlama yok idi. KSS ve fonksiyonel skorlama ameliyat öncesi dönemde 55 ve 15 iken ameliyat sonrası dönemde 83 ve 55 'e yükselsi idi. Konjenital patella çıkıştı ve gonartroz birlilikliğinin TDA ile tedavisi zor olmakla beraber iyi bir ameliyat öncesi planlama ve özenli uygulama ile iyi sonuçlar alınabilir.

#### Anahtar Kelimeler

Patellar Dislokasyon; Osteoartrit; Diz; Artroplasti

#### Abstract

Congenital patellar dislocation is a rare deformity and late presentation is usually with knee osteoarthritis. Total knee arthroplasty (TKA) is also a treatment choice of this rare pathology. There are few cases reported gonarthrosis with congenital patellar dislocation treated with TKA. And there are some contradictions in the written literature. This article presents a case of a 55 years old woman who had left knee pain for 8 years that was worsened in last 2 years with gonarthrosis and congenital patellar dislocation treated by cruciate retaining TKA with proximal and distal patellar alignment without patellar resurfacing. At the final follow-up after 1 year ROM was 5°-100°. There was no patellar maltracking or instability. The Knee Society score and functional scores were 55 and 15 preoperatively, improved to 83 and 55 respectively at the postoperative period. Congenital patella dislocation with gonarthrosis is hard to manage by TKA, but it can be handled with a good pre-operative planning with meticulous attention.

#### Keywords

Patellar Dislocation; Osteoarthritis; Knee; Arthroplasty

DOI: 10.4328/JCAM.2426

Received: 22.03.2014 Accepted: 02.04.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 404-7

Corresponding Author: Emrah Kovalak, Bahçelievler Mah. Mehmet Akif Cad. İpek Sok. No:15, Ağaoğlu My City 26A/3 Bahçelievler, İstanbul, Türkiye.

GSM: +905332346280 E-Mail: emrahkovalak@yahoo.com

## Introduction

Congenital patellar dislocation is a rare deformity and the etiology is unknown and late presentation is usually with gonarthrosis[1,2] The affected side is generally the lateral compartment of the knee with valgus deformity and medial laxity[2,3]. Congenital dislocation of patella can be associated with Down's syndrome, skeletal and cardiac anomalies[1].Total knee arthroplasty (TKA) is also a rare treatment choice in such patients[1,4]. A few cases of gonarthrosis with congenital patellar dislocation treated with TKA are reported in the literature with some contradictions in which constrained or unconstrained TKA, patellar resurfacing or not and realignment of extensor mechanism in practice[1,4-8].

This article presents a case of a patient with varus gonarthrosis and congenital patellar dislocation treated by cruciate retaining TKA with proximal and distal patellar alignment without patellar resurfacing and skin necrosis related to it.

## Case Report

A 55-year old woman presented with left knee pain that had nearly 8 years and it was worsened gradually in the last 2 years. She had no difficulty in daily life activities during childhood and adulthood. So, she did not seek medical treatment because the condition was well tolerated.

On physical examination, she had quadriceps atrophy. Patella was palpable at the lateral side of the left knee and had no mobility during flexion and extension. Range of motion (ROM) was -5° to 125° on the left knee.

Radiographs showed patellar dislocation of the left knee with gonarthrosis (Figure 1 and Figure 2). Six degrees of varus deformity was present in the knee. Total knee arthroplasty with



Figure 2. Preoperative lateral radiography

the correction of extensor mechanism planned for the knee of the patient.

A midline longitudinal skin incision made under tourniquet control. Medial parapatellar arthrotomy performed. The patella was located laterally and the femoral groove was absent (Figure 3). The medial retinaculum was thin while the lateral retinaculum was thick. The vastus medialis muscle was found to be stretched over the anterior aspect of the femur. Cruciate retaining femoral and tibial components implanted at first than, the extensor mechanism realigned. Patellar resurfacing was not performed. For the alignment of the extensor mechanism an extensive lateral retinacular release performed. Patella could not be reduced so, the rectus femoris tendon lengthened by Z- plasty. Thereafter, the patella was in the groove during extension but flexion was too limited. Than, the tuberositas tib-



Figure1. Preoperative anteroposterior radiography

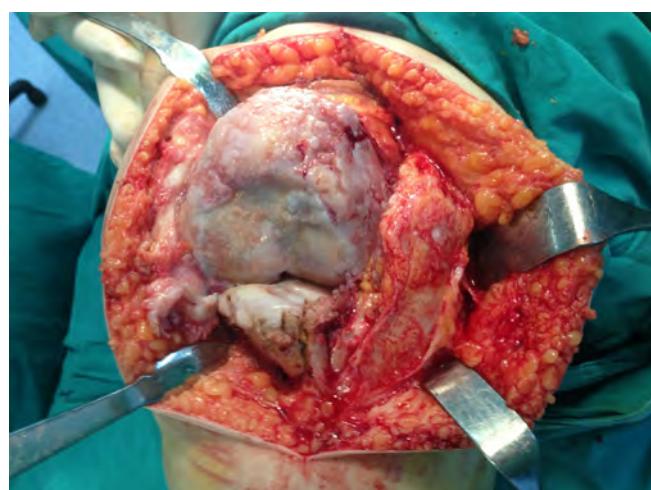


Figure 3. İntrooperative image of the knee joint

ia osteotomy and medialization performed and fixed with two 4.5 mm. cancellous screws. Thereafter, 60° of passive flexion of the knee gained with the hip flexed 90°. The lateral side of the arthrotomy was not closed. Medial plication performed as possible. Lateral side of the vastus medialis muscle sutured to the lateral edge of the quadriceps muscle.

immediate weight bearing allowed post operative first day with a brace of angle restrictions of 0°-10° for 3 weeks. The flexion increased gradually by 30° at each 3 weeks. Restrictions of motion terminated after consolidation of osteotomy had seen after 2 months post operatively . After two and half months post operatively skin necrosis occurred on the lateral side of the skin incision over the patella. Full thickness skin graft from the left thigh performed for the skin necrosis (Figure 4).



Figure 4. Intraoperative image of the skin necrosis before grafting

At the final follow-up after 1 year ROM was 5°-100°. Quadriceps strength was rated 5/5. The patient had a mild pain at the stairs only. There was no patellar maltracking or instability; however, radiographs showed minimal lateral patellar displacement on the anteroposterior view (Figure 5 and Figure 6). The Knee Society score and functional scores were 55 and 15 preoperatively, improved to 83 and 55 respectively at the postoperative period.

### Discussion

The etiology congenital patella dislocation is unknown[2]. In adulthood gonarthrosis may develop and mostly the lateral compartment of the knee is affected[2]. TKA is a treatment choice of the pathology[4]. Because of the rarity long -term sequelae are not well described and there are only a few reports in the literature with some contradictions[2,4-8]. The first case treated by TKA was reported by Marmor in 1988[7]. The extensor mechanism was not replaced and he proposed that if the patient compensated well the replacement of extensor mechanism should be avoided[7]. Also, Pradhan did not reconstruct the extensor mechanism in a case of treatment of bilateral congenital patellar dislocation with total knee arthroplasty[6]. Pradhan had to revised the right one with a constrained knee



Figure 5. Postoperative anteroposterior radiography



Figure 6. Postoperative lateral radiography

prosthesis, because of dislocation of the knee joint and the reason was excessive soft tissue release around especially at the lateral side of the knee and resection of posterior cruciate ligament[6]. Pradhan recommended that, if an excessive soft tissue release had been done, constrained type prosthesis should be considered first[6].

Proximal or distal realignment is required to relocate the extensor mechanism[2]. Proximal realignment of extensor mechanism could be achieved by Z-plasty or Vulpis techniques[3,4,6]. Quang et al. reported a new technique of V-W quadricepsplasty in 2010[2]. Their concern about the technique was loss of knee flexion because of positioning of extensor mechanism anterior to the plane of knee motion[2].

Tibial tubercle osteotomy is also not enough alone and associated with high risk of nonunion, soft tissue discomfort and skin necrosis while some reported good results of this technique [2,3,5]. Artificial ligament for medial patellofemoral ligament reconstruction is a way of to gain normal patellafemoral tracking also[5,8].

Patellar resurfacing also corrects the hypoplastic patellar surface and medially positioning of the patellar implant will be helpfull for patellar tracking[4].

Usually, posterior substituting TKA with was used in these cases but we performed cruciate retaining TKA without patellar resurfacing. But, we had to resurface the patella. We thought that the skin necrosis was associated with the thickness of the patella and furthermore, the medialization of the extensor mechanism caused the tension over the skin. This complication must be kept in mind while performing this surgery.

This pathology is hard to manage, but it can be handled with a good pre-operative planning either patella resurfaced or not and if needed, distal realignment of the extensor mechanism can be performed as well as proximal realignment or together with meticulous attention.

#### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

#### References

1. Oh KJ,Yoon JR, Yang JH. Total knee arthroplasty in a pseudoachondroplastic dwarfism patient with bilateral patellar dislocation. *Knee* 2013;20:45-8.
2. Dao Q, Chen DB, Scott, RD. Proximal patellar quadricepsplasty realignment during total knee arthroplasty for irreducible congenital dislocation of the patella. *J Bone Joint Surg Am* 2010;92 (14):2457-61.
3. Hau RC, Newman JH. Knee replacement for osteoarthritis secondary to chronic patellar dislocation and trochlear dysplasia. *Knee* 2008;15 (6):447-50.
4. Tunay S, Ozkan H, Köse O, Atik A, Basbozkurt M. Total knee arthroplasty in a patient with neglected congenital patellar dislocation. *Orthopedics* 2009;32(10):45-8.
5. Matsushita T, Kurado R, Kubo S, Mizuno K, Matsumoto T, Kurosaka M. Total knee arthroplasty combined with medial patellofemoral ligament reconstruction for osteoarthritic knee with preoperative valgus deformity and chronic patellar dislocation. *J Arthroplasty* 2011;26(3): 505. e17-20.
6. Pradhan RL, Watanabe W, Itoi E, Yamada S, Shimada Y, Sato K. Total knee arthroplasty in bilateral congenital dislocation of the patella- a case report. *Acta Orthop Scand* 2001; 72(4):422-4.
7. Marmor L. Total knee arthroplasty in a patient with congenital dislocation of the patella: Case report. *Clin Orthop* 1988; 226:129-33.
8. Sato H, Ishibashi Y, Tsuda E, Sasaki K, Toh S. Total knee arthroplasty for gonarthrosis with patellar dislocation. *J Orthop Sci* 2005;10(6):656-60.

#### How to cite this article:

Kovalak E, Barış A, Kanay E, Obut A, Tüzüner T. Total Knee Arthroplasty in a Patient with Neglected Congenital Patellar Dislocation. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 404-7.



## Percutaneous Transfemoral Repositioning of Malpositioned Port Catheter

### Malpoze Port Kateterinin Perkütan Transfemoral Yolla Repozisyonu

Olgu Sunumu / Case Report

Erdem Birgi, Onur Ergun, İdil Güneş Tatar, Baki Hekimoğlu  
Dışkapı Yıldırım Beyazıt Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Radyoloji Kliniği, Ankara, Türkiye

#### Özet

Subkutanöz implante edilen port kateterler günümüzde özellikle uzun süreli kemoterapi tedavisinde artan sıkılıkta kullanılmakta olup tekrarlayan intravenöz girişimlerde onkoloji hastalarına büyük konfor ve kolaylık sağlamamaktadır. Santral venöz portlarda teknik başarı yüksek, komplikasyon oranları düşük olmakla birlikte kateter malpozisyonu port disfonksiyon nedeni olarak karşımıza çıkabilmektedir. Bu yazımızda kateter malpozisyonuna sekonder portu çalışmayan hastanın kateterinin transfemoral girişim ile kement (snare) tekniği kullanarak repozisyonunu sunuyoruz.

#### Anahtar Kelimeler

Port Kateteri; Malpozisyon; Endovasküler Teknikler

#### Abstract

Subcutaneous implanted port catheters are widely used in the treatment of long-term chemotherapy with increasing frequency and provide great comfort to oncology patients. Although central venous ports are implanted with high technical success and low rates of complication, catheter malposition may arise as a cause of dysfunction in the port. Here we report repositioning of the malpositioned port catheter tip to the proper position with snare technique by transfemoral access.

#### Keywords

Port Catheter; Malposition; Endovascular Techniques

DOI: 10.4328/JCAM.2417

Received: 20.03.2014 Accepted: 02.04.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 408-10

Corresponding Author: Onur Ergun, Dışkapı Yıldırım Beyazıt Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Ankara, Türkiye.

T: +90 3125962618 GSM: +905326954040 E-Mail: onurergun@yahoo.com

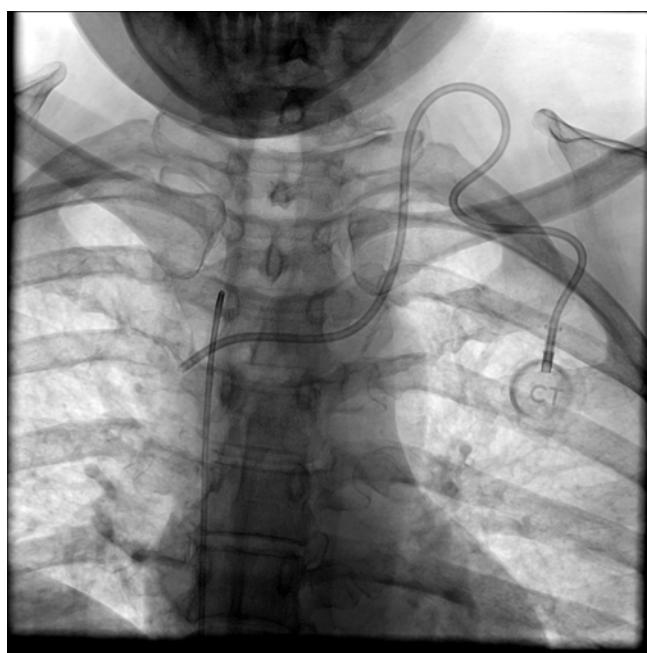
## Giriş

Subkutanöz implant edilen santral venöz portlar; özellikle onkoloji hastalarında uzun süreli ve tekrarlayan intravenöz kemoterapi tedavisinde, yaygın kullanılan ve gün geçtikçe sıklığı artan bir yöntemdir. Cerrahi implantasyonlarla karşılaşıldığında zaman, US ve floroskopi yöntemi kullanılarak yapılan minimal invaziv girişimlerde teknik başarının çok yüksek, komplikasyon oranlarının ise çok düşük olduğu bildirilmektedir [1]. Santral venöz port kateter disfonksiyonunun önemli nedenlerinden biri kateter malpozisyonu ve migrasyonu olup pek de nadir olmayan bir durumdur ve trombotik komplikasyonlara yol açmasından ötürü klinik açıdan önemlidir [2].

Biz bu yazımızda santral venöz port yerleştirilmesinden yaklaşık 1 ay sonra portun disfonksiyon göstermesi üzerine tarafımıza yönlendirilen ve kateter malpozisyonu saptanan hastanın port kateterinin, perkütan transfemoral girişim yolu ile kement (snare) tekniği kullanılarak tekrar optimal pozisyonuna getirilmesini sunuyoruz.

## Olgu Sunumu

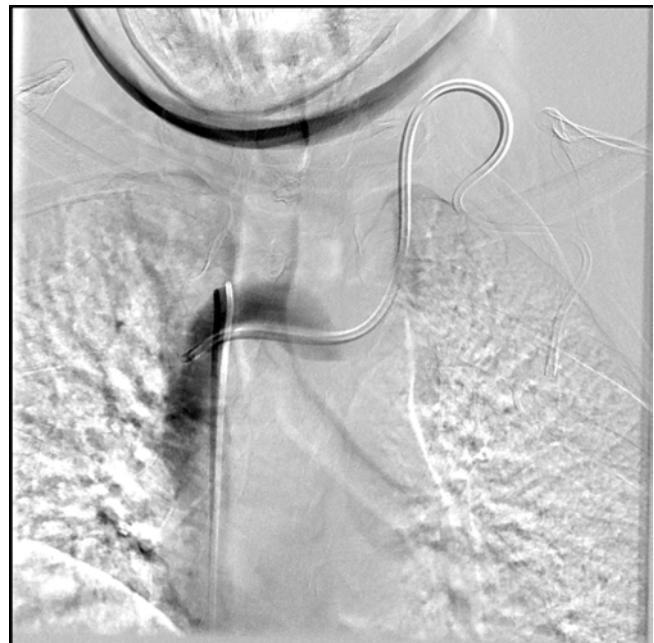
Endoserviks kanseri tanısıyla kemoterapi almak için subkutanöz venöz port takılan 51 yaşında kadın hasta, 1 ay sonra portunun çalışmaması üzerine kontrol amacıyla tarafımıza yönlendirildi. Sağ internal juguler veni daha önceki kateter girişimlerine bağlı olarak tromboze olan hastanın bu sebeple port kateterinin sol taraftan yerleştirildiği öğrenildi. Floroskopi eşliğinde portun pozisyonu değerlendirildiğinde; sol internal juguler venen giriş yapılarak yerleştirilen portun kateter ucunun kraniyale doğru geri geldiği ve kateterin internal juguler vene giriş yerinden kıvrılarak kraniyale yer değiştirdiği saptandı (Resim 1).



Resim 1. Sol internal juguler veden giriş yapılarak yerleştirilen portun kateter ucunun kraniyale doğru geri geldiği ve kateterin internal juguler vene giriş yerinden kıvrılarak kraniyale yer değiştirdiği görülmüyor.

Portun ilk takıldığı görüntüler retrospektif olarak incelendiğinde, kateter ucunun sağ atrium içerisinde optimal pozisyonda olduğu ve portun sorunsuz çalıştığı görüldü. Bunun üzerine kateter migrasyonu düşünülerek transfemoral yolla kateter ucunun tekrar atriuma çekilmesi planlandı. Lokal anestezi altında, US ve

floroskopi eşliğinde sağ ana femoral 5F introducer sheath yerleştirildi. Kontrast madde verilerek alınan görüntülerde kate-ter ucunun vena kava superior içerisinde olduğu ve vena kava superiorun patent olduğu görüldü (Resim 2). İlk olarak tek loop-



Resim 2. Kontrast madde verilerek alınan görüntülerde kateter ucunun vena kava superior içerisinde olduğu görülmüyor.

lu kement (10 mm AndraSnare AS-10, Andramed, Reutlingen, Germany) ile kateterin ucu yakalanmaya çalışıldı ancak başarılı olunamadı. Bunun üzerine sağ ana femoral vendeki mevcut sheath 6F ile değiştirildikten sonra üç looplu kement (9-15 mm EN Snare, Merit Medical, Utah, USA) ile yapılan denemelerde port kateterinin ucu yakalanarak sağ atriuma doğru çekildi (Resim 3a-c). Huber port iğnesi takılarak yapılan aspirasyon-

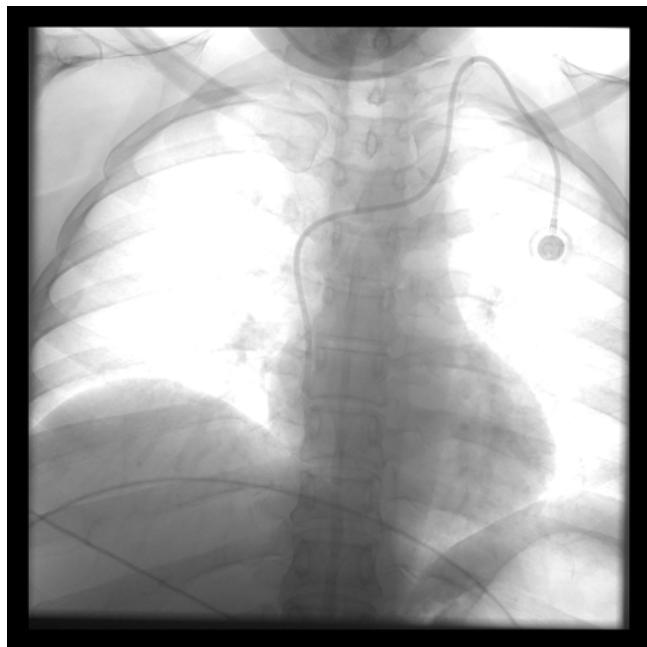


Resim 3. Üç looplu kement yardımıyla port kateterinin ucunun yakalanıp sağ atriuma doğru çekilmesi izleniyor (a,b,c).

puşelemede sorun saptanmadı ve porttan kontrast madde verilerek kateterin optimal yerleşimli olduğu teyit edildi (Resim 4). Hastanın portunun sorunsuz çalışması üzerine işleme son verildi. İşlemden sonra portu sorunsuz olarak kullanılmaya başlanan hasta bir ay sonra primer hastalığı sebebiyle exitus oldu.

## Tartışma-Sonuç

Santral venöz port kateterler günlük pratikte intravenöz kemoterapi için kalıcı akses sağlama başta olmak üzere; parenteral nütrisyon, hematopoietik kök hücre transplantasyonu ve antibiyotik infüzyon gibi tedavilerde uzun süreli ve güvenli bir yöntem olarak kullanılmaktadır [3]. Port implantasyonunda teknik başarı bir çok seride %99 olarak bildirilmiştir [1]. Oranın bu kadar yüksek olmasında US ve floroskopi rehberliğinin kullanılması ve bu konuda deneyimli kişiler tarafından yapılması şü-



Resim 4. İşlem sonrası port kateterinin ucunun optimal yerleşimli olduğu görülmüyor.

hesiz rol oynamaktadır.

İşlem sırasında arter yaralanması, port cebinde hematom, pnömotoraks, embolizm ve kardiak aritmi gibi komplikasyonlar (%0,4) görülebilmekte birlikte manuel kompresyon ve spontan rezolüsyon ile çoğu zaman ciddi boyutlara ulaşmaktadır. İşlem sonrası komplikasyonlar (%1,9), erken veya geç (>30 gün) dönemde görülmektedir. Bunların arasında port cebi enfeksiyonu, kateter oklüzyonu, hazne trombozu, fibrin kılıf formasyonu, kateter migrasyonu, kateter kırılması, port rotasyonu, venöz tromboz, yara yeri iyileşmesinde gecikme ve cilt nekrozu bulunmaktadır [1].

Migrasyon, port kateterlerinin en iyi bilinen komplikasyonlarından biridir. Çeşitli serilerde insidansı %0,9-1,8 olarak bildirilmiştir [2]. Kateter migrasyonu daha çok işlem sonrası erken dönemde (<30 gün) karşımıza çıkmaktadır ve portun tamamen çıkarılması ya da kateter repozisyonu ile tedavi edilmektedir [1]. Oluş mekanizması tam olarak bilinmemekle birlikte; damar dışı komponentin özellikle obez ve büyük memeli kadın hastalarda fiziksel aktiviteyle, damar içi komponentin ise öksürme, hafşırma, ağır kaldırma gibi karın içi basıncı artıran durumlarda ve yüksek basınçlı ilaç infüzyonuna bağlı meydana gelebileceği olgu sunumları ile gösterilmiştir. Ayrıca portun ilk takılma esnasındaki yerleştirilme pozisyonu olası migrasyon gelişmesinde önemli rol oynamaktadır [2].

Bizim olgumuzda da portun sol internal juguler vene giriş yapılarak takılmasının, hastanın obez ve büyük memeli olmasının kateterin migrasyonunda rol oynadığı düşünülmüştür. Bu gibi hastalarda portun cilt altı dokulara sütür ile fiksasyonu ve kateter ucunun atriokaval bileşke yerine sağ atrium içinde bırakılmasının işlem sonrası migrasyon riskini azaltabileceğini bildirilmektedir [1].

Özellikle port implantasyonu sonrası gerek erken dönemde gerekse kullanılmadığı uzun süreli dönemlerde kateter pozisyonunun akciğer grafisi ile periyodik olarak takip edilmesi önerilmektedir. Kateter migrasyonu kateter disfonksiyonu yanı sıra, tromboz, venöz flebit ve oklüzyon gibi komplikasyonlara neden

olabilmesi nedeniyle erken dönemde tedavi edilmelidir. Bu gibi durumlarda portun çıkarılması ve isteniyorsa tekrar takılması tedavi seçenekleri olmakla birlikte, çıkartma işlemi enfeksiyon riski taşımaktadır ve hasta açısından da rahatsız bir durumdur. Bu nedenle, ilk takıldığı andaki port ve kateterinin pozisyonu uygunsa transfemoral yolla repozisyon tekniği tercih edilmelidir [2]. Transfemoral giriş yapıldıktan sonra repozisyon amacıyla hangi kateterin kullanılacağı daha çok migrasyonun derecesine bağlıdır. Karşı subklavyen vene uzanan malpoze santral venöz kateterlerin repozisyonu Simmons ya da Pigtail kateterler ile başarıyla uygulanmaktadır [3, 4]. Bizim olgumuzda port kateterin ucu sağ atriumdan vena kava superiore migrasyon gösterdiği için kement tekniği daha uygun bir yöntem olarak görülmüştür. Girişimsel radyologlar portların sadece takılması aşamasında değil aynı zamanda port kateterlerin erken ve geç dönem komplikasyonlarında da etkin rol oynamaktadır. Port kateter migrasyonu için öncelikle implantasyon sırasında gerekli önlemler alınmalıdır. Uygun venöz akses sonrası damar içi ve damar dışı komponentlerin optimal pozisyonlara yerleştirilmesi; kateter migrasyonlarının transfemoral yolla tedavisinde başarılı sonuçlar elde edilmesini sağlamaktadır. Perkutan transfemoral yolla kement kullanılarak yapılan kateter repozisyonu hem hasta hem de uygulayıcı açısından hızlı, kolay, güvenli ve aynı zamanda komplikasyon oranları düşük, teknik başarı oranları ise çok yüksek bir yöntemdir.

#### Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### Kaynaklar

1. Ahn SJ, Kim HC, Chung JW, An SB, Yin YH, Jae HJ, et al. Ultrasound and fluoroscopy-guided placement of central venous ports via internal jugular vein: Retrospective analysis of 1254 port implantations at a single center. Korean J Radiol 2012; 13: 314-23.
2. Ahn KS, Yoo K, Cha IH, Seo TS. Spontaneously migrated tip of an implantable port catheter into the axillary vein in a patient with severe cough and the subsequent intervention to reposition it. Korean J Radiol 2008; 9: 81-4.
3. Chauhan A, Pathak1 K, Ganguly M. Percutaneous transfemoral repositioning of malpositioned central venous access device: A report of two cases. J Cancer Res Ther 2010; 6: 102-5.
4. Hartnell GG, Roizental M. Percutaneous transfemoral repositioning of malpositioned central venous catheters. Am J Roentgenol 1995; 164: 1003-6.

#### How to cite this article:

Birgi E, Ergun O, Tatar İG, Hekimoğlu B. Percutaneous Transfemoral Repositioning of Malpositioned Port Catheter. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 408-10.



## Reduction of Hip Dislocation with Fascia Iliaca Compartment Block

### Fascia İliaca Kompartman Bloğu ile Kalça Çıkık Redüksiyonu

Fascia İliaca Kompartman Bloğu ile Kalça Çıkık Redüksiyonu / Reduction of Hip Dislocation with Fascia Iliaca Block

Ümit Kaldırım<sup>1</sup>, Salim Kemal Tuncer<sup>1</sup>, Serkan Bilgiç<sup>2</sup>, Memduh Yetim<sup>3</sup>, Yusuf Emrah Eyi<sup>1</sup>

<sup>1</sup>GATA, Acil Tıp AD, Ankara, <sup>2</sup>GATA Haydarpaşa Eğitim Hastanesi, Ortopedi ve Travmatoloji Kliniği, İstanbul,

<sup>3</sup>GATA, Anestezi ve Reanimasyon AD, Ankara, Türkiye

#### Özet

Kalça çıkışları en sık travmaya bağlı olur. Bu hastaların acil serviste ağrı yönetimi ve redüksiyon işlemi oldukça zordur. Redüksiyon için genellikle prosedürel sedasyon kullanılmaktadır. Özellikle yaşlı hastalarda prosedürel sedasyon için kullanılabilecek ilaçların önemli yan etkileri bulunmaktadır. Ağrı kontrolü amacıyla kalça kırıklarında kullanılan lokal blokların çıkışlarında kullanımına dair henüz yeterli bilgi yoktur. Bu yazında 65 yaşında, kalça çıkışlığı olan ve lokal blok uygulaması yapılarak başarılı redüksiyon sağlanan bir hasta sunuldu.

#### Anahtar Kelimeler

Kalça; Çıkık; Redüksiyon; Sinir; Blok

#### Abstract

Hip dislocation is most commonly caused by trauma. Reduction procedure and pain control of patients with hip dislocation in emergency service is quite difficult. Procedural sedation is generally used for the reduction. Pain management with drugs may cause a large variety of deleterious side effects especially in aged. There is inadequate information yet about performance of local block in hip dislocations that used to be performed in order to control the pain of hip fracture. In this report, we describe a 65-year-old woman who presented with right hip pain and limping as a result of trauma had fascia iliaca compartment block.

#### Keywords

Hip; Dislocation; Reduction; Nerve; Block

DOI: 10.4328/JCAM.2403

Received: 12.03.2014 Accepted: 02.04.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 411-3

Corresponding Author: Yusuf Emrah Eyi, GATA Acil Tıp AD, Etilk, Ankara, Türkiye.

T: +90 3123043059 E-Mail: dremraheyi@yahoo.com

## Giriş

Kalça çıkışları çok sık olmama da acil servis başvuru nedenleri arasında yer alır. Kalça çıkışları en sık travmaya bağlı oluşur. Bu hastaların acil serviste ağrı yönetimi ve redüksiyon işlemi oldukça zordur. Ağrı kontrolü için kullanılabilecek ilaçların çeşitli yan etkileri olabilir. Özellikle yaşlı hastalarda prosedürel sedasyon için kullanılabilecek ilaçların önemi yan etkileri bulunmakta [1,2]. Bu hastalarda ağrı kontrolü için prosedürel sedasyon dışında lokal blok işlemleri yapılabilir. Femur fraktürü nedeniyle acil servise müracaat etmiş olgularda ağrı kontrolü için fascia iliaca kompartman ve femoral sinir bloğu uygulamalarının yapıldığı bilinmektedir [3,4]. Acil serviste kalça çıkışlarının redüksiyon işleminde lokal blok uygulamasının etkinliği tam olarak bilinmemektedir. Kalça çıkışlarında bu uygulamalar ile hem redüksiyon işlemi esnasında ağrı kontrolü yapmak hem de prosedürel sedasyona bağlı gelişebilecek komplikasyonları önlemek mümkün olabilir. Bu çalışmada düşme sonrası kalça çıkışının gelişen kalça protez operasyonlusunu bir hastanın acil serviste fascia iliaca kompartman bloğu ile gerçekleştirilen redüksiyon işlemi paylaşılmaktadır.

## Olgu Sunumu

65 yaşında bayan hasta düşme sonrası sağ kalça ağrısı ve yüreğe zorluğu şikayeti ile acil servise başvurdu. Hipertansiyon ve kronik obstrüktif akciğer hastalığı tanıları olan hasta, 3 yıl önce total sağ kalça protezi ameliyatı olmuştu. Sağ alt ekstremiten duyu ve periferik arter muayenesi normal olan hastanın alt ekstremiten hareketlerinin kısıtlı ve ağrılı olduğu tespit edildi. Direkt radyografide sağ kalçada yer alan protezin çıkış olduğu saptandı (Resim 1). Bir kez redüksiyon işlemi denendi ve başarılı olunmadı. Ağrı kontrolü ve redüksiyon kolaylığı için mevcut hastalıkları ve kullanılacak ilaçlara bağlı oluşabilecek yan etkiler nedeniyle hastaya fascia iliaca kompartman bloğu yapılmasına karar verildi. Vital bulguları (SaO<sub>2</sub>; %88 hariç) normal olan hastanın fascia iliaca kompartmanına ultrasonografi (USG) eşliğinde 10 ml normal salin (%0,9 NaCl), %10 ml Bupivakain HCl (%0,5), 10 ml Lidokain HCl (%1) den oluşan toplam 30 ml enjeksiyon uyg-

landı [3]. Yeterli anestezi sağlandıktan sonra çıkış ilk denemede (Allis yöntemi) başarı ile redükte edildi (Resim 2). Redüksiyon işlemi esnasında prosedürel sedasyon yapılmadığı için hasta acil serviste daha kısa süre takip edildi. İşlem sonrasında hasta ortopedi kliniğine yönlendirildi.



Resim 2. Redüksiyon sonrası kalça grafisi.

## Tartışma ve Sonuç

Aktif yaşam süresince fonksiyonel özelliğinden dolayı kalça eklemi ile ilgili kırık ve çıkış gibi patolojiler oldukça sık olarak görülür [5]. Çocuk yaş döneminde gelişimsel ve septik artrit gibi nedenlerle görülebilen kalça çıkışının ise en sık nedeni travmadır [6,7]. Acil servislerde femur fraktürlerine bağlı ağrı kontrolünde femoral sinir bloğu ile uygulama sonrasında 15. ve 30. dakikalarda ağrının önemli derece azaldığı ve bu rahatlamadan 4. saatte kadar devam edebildiği bilinmektedir. Ayrıca bu işlemin USG yardımı ile kolayca uygulanabilmektedir [4]. Femur kırık ve çıkışları gibi proteze sahip olgularda oluşabilecek kalça çıkışları nadir de olsa acil servise başvuru nedenleri arasında yer alır. Bu hastalarda protez yapısında bozulma yoksa redüksiyon yapılabılır. Bu işlem ağrılı ve zordur. Ağrı kontrolü için analjezikler ve hatta gerekirse prosedürel sedasyon uygulanmalıdır. Femur fraktürü nedeniyle acil servise başvuran hastaların stabilizasyon ve ağrı kontrolünde fascia iliaca kompartman bloğu uygulanmaktadır [3,8]. Bu işlemin kolay ve güvenli bir şekilde uygulanması için USG eşliğinde yapılması önerilmektedir [9]. Femur fraktürü gibi, kalça çıkışlı ve özellikle yaşlı olgularda redüksiyon işlemleri esnasında da çeşitli nedenlerden (sistematik ilaç kullanımına bağlı oluşabilecek yan etkiler) dolayı periferik sinir bloğu uygulaması tercih edilebilir. Bu yöntem ile hem hasta hem de doktorun işleme ait memnuniyeti sağlanabilir. Ayrıca lokal blok uygulamaları, redüksiyon işleminin başarılı bir şekilde ve kolay-



Resim 1. Hastanın kalça grafisinde sağ posterior kalça çıkışının görünümü.

ca gerçekleştirilemesine katkı sunduğu gibi hastanın acil serviste kalış süresini kısaltabileceğinin değerlendirilmektedir.

#### **Çıkar Çağışması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çağışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Strayer RJ, Nelson LS. Adverse events associated with ketamine for procedural sedation in adults. *Am J Emerg Med* 2008;26(9):985-1028.
2. Foss NB, Kristensen BB, Bundgaard M, Bak M, Hering C, Virkelyst C, Hougaard S, Kehlet H. Fascia iliaca compartment blockade for acute pain control in hip fracture patients: a randomized, placebo-controlled trial. *Anesthesiology* 2007;106(4):773-8.
3. Elkhodair S, Mortazavi J, Chester A, Pereira M. Single fascia iliaca compartment block for pain relief in patients with fractured neck of femur in the emergency department: a pilot study. *Eur J Emerg Med* 2011;18(6):340-3.
4. Beaudoin FL, Nagdev A, Merchant RC, Becker BM. Ultrasound-guided femoral nerve blocks in elderly patients with hip fractures. *Am J Emerg Med* 2010;28(1):76-81.
5. Gökçe H, Altunkılıç T, Serbest S. Results of Total Hip Arthroplasty. *J Clin Anal Med* 2014;5(3): 177-81.
6. Gökçalp MA, Ceylan MF, Güner S, Türktaş U, Ediz L. Hip Dislocation and Physis Separation Related to the Delayed Diagnosis of Septic Arthritis - Case Report. *J Clin Anal Med* 2014;5(1): 59-61.
7. Zengin EC, I Gülmán B, Cıraklı A. Salter's Innominate Osteotomy in the Treatment of Congenital Hip Dislocation. *J Clin Anal Med* 2014; DOI: 10.4328/JCAM.2303.
8. Wathen JE, Gao D, Merritt G, Georgopoulos G, Battan FK. A randomized controlled trial comparing a fascia iliaca compartment nerve block to a traditional systemic analgesic for femur fractures in a pediatric emergency department. *Ann Emerg Med* 2007;50(2):162-71.
9. Haines L, Dickman E, Ayvazyan S, Pearl M, Wu S, Rosenblum D, Likourezos A. Ultrasound-guided fascia iliaca compartment block for hip fractures in the emergency department. *J Emerg Med* 2012;43(4):692-7.

#### **How to cite this article:**

Kaldırım Ü, Tuncer SK, Bilgiç S, Yetim M, Eyi YE. Reduction of Hip Dislocation with Fascia Iliaca Compartment Block. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 411-3.



## Primary Renal Carcinoid Tumor: A Case Report

### Primer Renal Karsinoid Tümör: Olgu Sunumu

Renal Karsinoid Tümör / Renal Carcinoid Tumor

Mehmet Karabakan<sup>1</sup>, Serkan Akdemir<sup>1</sup>, Alp Özgür Akdemir<sup>1</sup>, Sezer Kulaçoğlu<sup>2</sup>, Mesut Çetinkaya<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Urology Department, <sup>2</sup>Pathology Department, Ankara Numune Education and Training Hospital, Ankara, Turkey

#### Özet

Primer renal karsinoid tümör, nöroendokrin hücrelerden köken alan oldukça nadir görülen bir neoplazmdir. Bu kadar nadir görülmesi nedeniyle immunohistokimyasal karakteristiği net olarak ortaya konulamamıştır. Vakamızda; 23 yaşında erkek hastanın rastlantısal olarak saptanan sağ renal kitlesi mevcuttu, sağ radikal nefrektomi uygulandi. Postoperatif 22 aylık takiplerinde hastada metastaz veya nüks se rastlanmadı.

#### Anahtar Kelimeler

Renal Kanser; Nöroendokrin Tümör; Nefrektomi

#### Abstract

Primary renal carcinoid tumor is an extremely uncommon neoplasm that arises from neuroendocrine cells. As it is extremely uncommon, its immunohistochemical characteristics have not been clearly determined. In this case, a 23-year-old male patient was incidentally identified with right renal mass. Right radical nephrectomy was performed. Postoperative 22-month follow- up showed no metastasis or recurrence.

#### Keywords

Neuroendocrine Tumors; Renal Cancer; Nephrectomy

DOI: 10.4328/JCAM.2411

Received: 18.03.2014 Accepted: 07.04.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 414-6

Corresponding Author: Mehmet Karabakan, Ülkü Mah. Talatpasa Blv. B Blok 3. Kat Sıhhiye, Altındağ, Ankara, Türkiye.

GSM: +905367678034 E-Mail: karabakanm@hotmail.com, mkarabakan@yandex.com

## Introduction

Carcinoids are well differentiated neuroendocrine tumors that are common in the gastrointestinal system (74%), bronchial system and lung (25%). They also rarely (less than 1%) develop in the genitourinary system [1].

Primary renal carcinoid tumors are extremely uncommon. Less than 65 cases have been reported in the literature [2]. It is relatively more frequent in young adults than renal carcinoid tumors (median age 50). The prevalence in males and females is the same. It was reported that 55.8% of patients are admitted to hospital due to abdominal/flank pain and hematuria; only 13.6% of patients present with carcinoid syndrome [3]. While it is identified incidentally in 30% of patients, palpable mass is detected in 27%.

In some cases, substances such as chromogranin and serotonin can be identified in blood, or serotonin metabolite 5-Hydroxyindoleacetic acid (5-HIAA) can be identified in 24-hour urine.

## Case Report

A 23-year-old male patient was admitted to general surgery clinic due to constipation. Patient history and physical examination showed no pathologic finding. Biochemical analyses showed urea: 18 mg/dL, creatinine: 0.9 mg/dL, aspartate aminotransferase (AST): 30 U/L, alanine aminotransferase (ALT): 35 U/L, haemoglobin (Hb): 16 g/dL, Hematocrit: 47%, Platelet: 250000/dL. Posterior-anterior (PA) lung graphy was normal. Upper abdomen and pelvic spiral computed tomography was taken with and without contrast. Computer tomography (CT) showed a 9x7.5x7.5 centimetre (cm) mass lesion in the right kidney upper median posterolateral, which pushes the kidney towards the median and grew into posterior perirenal fatty tissue and infiltrated renal sinus fatty tissue. The mass contained a necrotic region and showed weaker contrast than the kidney (Images 1).

The patient underwent right radical nephrectomy on 11 May 2011. The patient was diagnosed with carcinoid tumor via pathologic evaluation. Postoperative somatostatin (octreotide) scintigraphy was normal. No tumor was found in esophagogastroduodenoscopy or colonoscopy. Postoperative 22-month follow-up showed no local recurrence or metastasis.

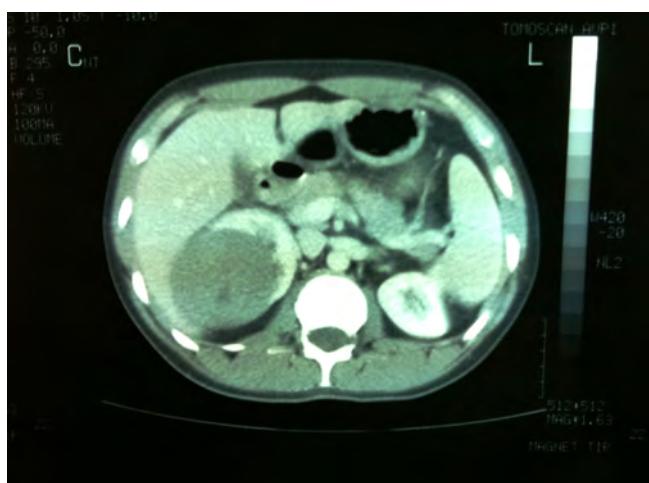


Image 1. CT of the abdomen revealed a large malignant mass arising from the right kidney.

## Pathology

Grossly, the nephrectomy material was measured 13x11x8 cm. On section, well circumscribed encapsulated solid mass, localized on one pole, beneath the renal capsule and involving both cortex and medulla was detected. The mass measured 7 cm in greatest dimension and the cut surface was diffusely haemorrhagic.

Microscopically the encapsulated tumor consisted of uniform cells arranged in trabecules, rows, glandular structures and exhibited ribbon like pattern (Fig 1-A). The tumor cells were of uniform, small to intermediate size with hyperchromatic, round nuclei and moderate amount of cytoplasm. The stroma was diffusely haemorrhagic (Fig 1-B), the cells were necrobiotic and dissociated in most areas and this feature made the evaluation of the mitotic rate difficult. However the Ki-67 index was lower than 1%. Although the tumor cells invaded its own capsule in some foci, they didn't invade the renal parenchyma. Perineural invasion was observed (Fig 1-C). Immunohistochemically the tumor showed diffuse positivity for vimentin, NSE (neuron specific enolase) (Fig 1-D), synaptophysin (Fig 1-E) and CK18. Most of the cells were chromogranin positive (Fig 1-F) whereas a wide range of markers performed (CD10, RCC, EMA, panCK, HMWCK, CK7, CK20, CK8, CEA, inhibin, melanA, S100, TTF-1, WT1, CD99, CD56, SMA) were negative. The tumor was reported as neuroendocrine tumor consistent with carcinoid. It is also noted on the report that after a thorough search of all the organs and the systems and with the exclusion of another tumor, this tumor could be accepted as a primary renal carcinoid.

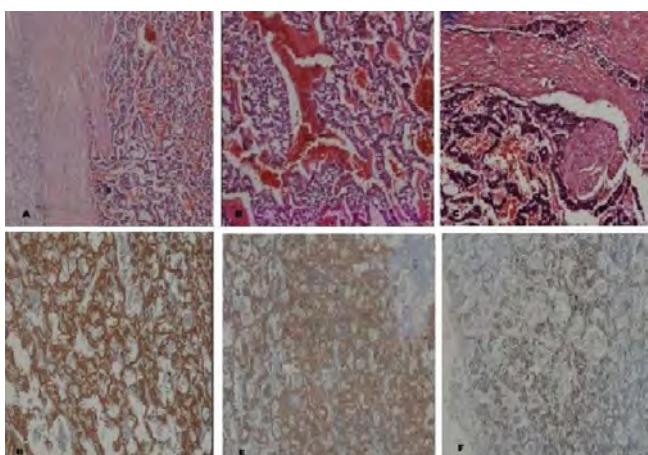


Figure 1. Microscopically tumor consisted of uniform cells arranged in trabecules, rows, glandular structures (A). The stroma was diffusely haemorrhagic (B). Perineural invasion was observed (C). Immunohistochemically the tumor showed diffuse positivity for vimentin, NSE (D), synaptophysin (E) and chromogranin positive (F).

## Discussion

Primary renal carcinoid tumor was first reported in 1966, by Resnick. Since then, due to the rarity of this disease, prognosis, clinical behavior and immunohistochemical characteristics have not been clearly determined [4].

Renal carcinoid tumor arises from neuroendocrine cells, as with other localizations of carcinoid tumor. Normal kidney tissue does not contain neuroendocrine cells.

Several hypotheses have been suggested in an attempt to explain how neuroendocrine cells, which play a role in pathogenesis of carcinoid tumor, reach the kidney. These hypotheses include congenital and acquired renal anomalies. Metaplasia in

pyelocaliceal urothelium due to chronic inflammation; metastasis from non-established primary tumor; trapped or wrong localization of pancreatic tissue or neural crest cells in the kidney during embryogenesis; activation of common gene sequences in multipotent primitive root cells with neuroendocrine programmed cells; and simultaneous congenital renal anomalies [5,6].

A review by Romero et al. found other accompanying renal pathologies in 26.8% of patients. Horseshoe kidney was identified in 17.8%, renal teratoma was identified in 14.3% and polycystic renal disease was identified in 1.8% of patients [7]. Relative risk for renal carcinoid in patients with horseshoe kidney was reported to be 62–82% [5].

These tumors are often identified during the fourth decade (range 13–68, mean 47). The prevalence in males and females is the same. Common symptoms are abdominal/flank pain, abdominal mass, loss of weight and hematuria.

Laboratory diagnosis involves identification of neuroendocrine substances in blood and urine. These include serum chromogranin, serotonin, glucagon, gastrin, somatostatin, calcitonin, pancreatic peptide, vasoactive intestinal peptide, adrenocorticotrophic hormone (ACTH) and 5HIAA in urine. However, there is currently no chemical test to endocrinologically identify whether silent renal masses are renal carcinoid.

Radiological findings observed in carcinoid tumors are common with renal cell carcinoma (RCC). Radiological imaging shows calcification in approximately 26.5% of renal carcinoid tumors. Lesion is monitored heterogeneously. CT shows minimal contrast involvement, while angiography shows hypo-vascular or avascular lesion. Recently, octreotide scintigraphy began to be used as sensitive imaging modality in diagnosis and staging of the tumor. Primary carcinoid tumor and metastases show high affinity to more than 85% of somatostatin receptors [8].

Metastasis rate of carcinoid tumors is directly related to the dimensions of the primary tumor. Primary renal carcinoid tumors show less aggressive biological character than RCC [6]. In general, metastases are present in 45.6% of cases at the time of diagnosis and metastasis develops in 59% of patients. The tumors that develop metastasis are larger than 4 cm. Generally, metastases occur in regional lymph nodes, liver and bones.

Primary treatment in primary renal carcinoid tumors involves surgical resection and regional lymph node dissection. Lymph node metastasis is present during surgery in 47% of patients. In 43-month postoperative follow-ups, although lymph node metastasis was present in pathology specimens, the absence of evidence for the disease was taken to indicate the possibility of surgical and curative treatment [7].

When renal carcinoid is detected, potential primary lesions should be analyzed via another focus [8]. Octreotide scintigraphy is the first and most important diagnostic test. Serum chromogranin and urine 5-HIAA identification is used in the absence of neuroendocrine symptoms.

It was reported that 50% metastasis can develop in postoperative 7th year. Therefore, long-term follow-up is necessary. Biomarkers should be examined at 3–6 month intervals; imaging should be conducted at 6–12 month intervals.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Singh PP, Malhotra AS, Kashyap V. Carcinoid tumor of the kidney: An unusual renal tumor. *Indian J Urol* 2009;25(4):537-8.
2. Jeung JA, Cao D, Selli BW, Clapp WL, Oliai BR, Parwani AV, et al.. Primary renal carcinoid tumors: clinicopathologic features of 9 cases with emphasis on novel immunohistochemical findings. *Hum Pathol* 2011;42(10):1554-61.
3. Shurtleff BT, Shvarts O, Rajfer J. Carcinoid tumor of the kidney: case report and review of the literature. *Rev Urol* 2005;7(4):229-33
4. Resnick ME, Unterberger H, McLoughlin PT. Renal carcinoid producing the carcinoid syndrome. *Med Times* 1966;94(8):895-6.
5. Bégin LR, Guy L, Jacobson SA, Aprikian AG. Renal carcinoid and horseshoe kidney: a frequent association of two rare entities-a case report and review of the literature. *J Surg Oncol* 1998;68(2):113-9.
6. Yoo J, Park S, Jung Lee H, Jin Kang S, Kee Kim B. Primary carcinoid tumor arising in a mature teratoma of the kidney: a case report and review of the literature. *Arch Pathol Lab Med* 2002;126(8):979-81.
7. Romero FR, Rais-Bahrami S, Permppongkosol S, Fine SW, Kohanim S, Jarrett TW. Primary carcinoid tumors of the kidney. *J Urol* 2006;176: 2359-66.
8. Mufarrij P, Varkarakis IM, Studeman KD, Jarrett TW. Primary renal carcinoid tumor with liver metastases detected with somatostatin receptor imaging. *Urology* 2005;65(5):1002.

### How to cite this article:

Karabakan M, Akdemir S, Akdemir AÖ, Kulaçoğlu S, Çetinkaya M. Primary Renal Carcinoid Tumor: A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 414-6.



## Final Diagnosis of Resisting Asthma: Incomplete Double Aortic Arch with Distal Left Arch Atresia

## Dirençli Astım Tanılı Hastaya Nihai Tanı: Distal Sol Ark Atrezili İnkomplet Çift Aortik Ark

İnkomplet Çift Aortik Ark / Incomplete Double Aortic Arch

Emrah Seker<sup>1</sup>, Mehmet H. Atalar<sup>2</sup>, Selma Yucel<sup>2</sup>, Kenan Varol<sup>3</sup>, Ferhat Sezer<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Tatvan State Hospital, Department of Radiology, Tatvan, Bitlis,

<sup>2</sup>Cumhuriyet University School of Medicine Department of Radiology, Sivas,

<sup>3</sup>Amasya University School of Medicine Department of Radiology, Amasya, Turkey

### Özet

İnkomplet çift aortik ark nadir bir vasküler anomalidir. Bu vakada dispne ve disfaji şikayeti ile gelen astım yanlış tanılı inkomplet çift aortik ark olgusunun karakteristik görüntüleme bulguları sunulmuştur.

### Anahtar Kelimeler

İnkomplet Çift Aortik Ark; Astım; Bilgisayarlı Tomografi

### Abstract

Incomplete double aortic arch is a rare vascular anomaly. We describe a case of distinctive imaging features of incomplete double aortic arch misdiagnosed as asthma that admitted with dyspnea and dysphagia.

### Keywords

Incomplete Double Aortic Arch; Asthma; Computed Tomography

DOI: 10.4328/JCAM.2428

Received: 23.03.2014 Accepted: 07.04.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 417-9

Corresponding Author: Emrah Seker, Tatvan State Hospital, Department of Radiology, 13200, Tatvan, Bitlis, Turkey.

GSM: +905452101410 E-Mail: dremrahseker@hotmail.com

## Introduction

Incomplete double aortic arch is a rare anomaly resulting from atresia. This anomaly is a rare cause of a potentially symptomatic vascular ring[1, 2]. Incomplete double aortic arch anomalies look like typical double aortic arches, but atresia of a fragment of the left arch is present, resulting in a non-patent fibrous cord[2]. This anatomic vascular anomaly may cause stridor, wheezing or dysphagia[3]. Contrast-enhanced CT is an important tool in evaluating patients with aortic arch abnormalities and it allows for multiplanar visualization of aortic anatomy while clearly depicting any associated mass effect on the adjacent trachea or esophagus. We describe distinctive imaging features in a case of incomplete double aortic arch misdiagnosed as asthma.

## Case Report

We present a ten-year-old girl who admitted with dyspnea and dysphagia. Physical examination and history revealed cough, that didn't respond to medical asthma therapy. In order to show relation between the tracheobronchial tree and the abnormal vascular structure, contrast-enhanced multi-detector CT was performed. Axial MIP images showed right archus aorta, incomplete double aortic arch with left arch atresia and aortic diverticulum (Fig. 1). Three dimensional reconstructed CT images made it easier to see the narrowing of the tracheobronchial tree (Fig. 2).

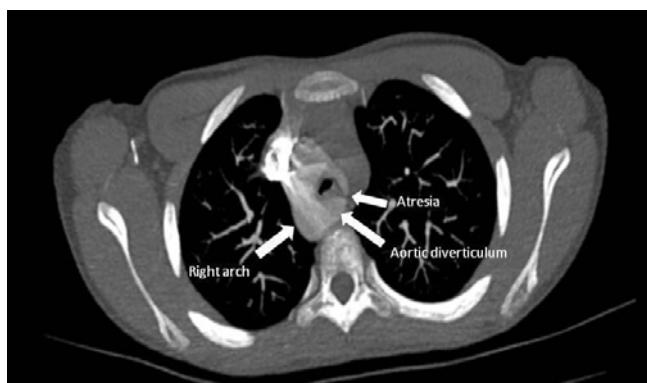


Figure 1. Axial MIP image show right archus aorta, incomplete double aortic arch with left arch atresia and aortic diverticulum

## Discussion

All reported vascular rings represents less than 1-% of all congenital cardiovascular anomalies. Incomplete double aortic arch occurs because of atresia during the embryonic period at any point on either side of double aortic arch[2]. Incomplete double aortic arch include a non-patent fibrous cord connecting the descending aortic diverticulum[1]. This potential vascular ring usually shows itself with tracheoesophageal compression.

The lack of complete left arch easily distinguishes incomplete double aortic arch with distal left arch atresia from complete double arch. Incomplete double aortic arch include two types depending on localization of atresia. Atresia occurs distal to left ductus with resulting fibrous cord that inserts in descending aortic diverticulum (subtype 1). Atresia occurs between left subclavian artery and ductus with resulting fibrous cord. Both cord and left ductus insert in aortic diverticulum (subtype 2). These two forms of incomplete double aortic arch are indistinguishable by imaging, because the ductus and the fibrous cord are

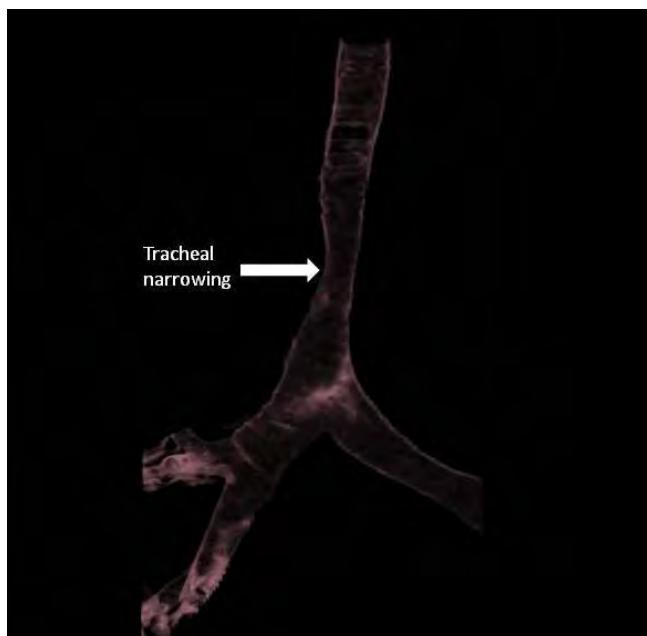


Figure 2. Three dimensional reconstructed CT image makes it easier to see the narrowing of the tracheobronchial tree

not visible on MR or CT images[1].

Relationship with adjacent structures of aortic arch can be accurately defined by CT and MR. These methods allow virtual demonstration of vessels with possibility of 3-D display. Additionally, the vessels are assessable by MR techniques not requiring intravenous contrast injection. In our case MR angiography could not be examined because of technical problems on the device. We tried to demonstrate 3-D definition and multiplanar reconstruction of the airway and aortic diverticulum with multidetector contrast-enhanced CT. Identification and demonstration of some of the anatomical features such as tracheal narrowing, esophageal compression, aortic diverticulum are important for the surgeon to be aware of anatomic possibilities and to predict the course of operation.

Most congenital abnormalities of the aortic arch cause respiratory symptoms and swallowing difficulties[4]. Main symptoms of our patient were also dysphagia and dyspnea. Some cases reported different presentations like heart failure, widening of the superior mediastinum on chest radiograph[5], recurring pneumonia[3], postprandial choking and respiratory distress[6]. Two cases with incomplete double aortic arch reported as misdiagnosed asthma in the literature[7, 8]. Similarly, the present case had been treated for asthma for 8 years but symptoms hadn't completely reduced.

In conclusion, vascular ring abnormalities such as incomplete double aortic arch with distal left arch atresia should be in mind for the differential diagnosis of asthma and dysphagia combination in early ages. Contrast-enhanced CT may provide reliable diagnostic information for therapy planning.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Schlesinger AE, Krishnamurthy R, Sena LM, Guillerman RP, Chung T, DiBardino DJ, et al. Incomplete double aortic arch with atresia of the distal left arch: distinctive imaging appearance. *AJR Am J Roentgenol* 2005;184:1634-9.
2. Shuford WH, Sybers RG. The Aortic Arch and Its Malformations. Springfield, IL:

Charles C Thomas; 1974. p. 131.

3. Kantarci M, Sagsoz E, Ceviz N. Images in clinical medicine. Incomplete double aortic arch. *Wien Klin Wochenschr* 2008;120:599.
4. Bashar AH, Kazui T, Yamashita K, Terada H, Washiyama N, Suzuki K. Right aortic arch with aberrant left subclavian artery symptomatic in adulthood. *Ann Vasc Surg* 2006;20:529-32.
5. Choh T, Suzuki S, Isomatsu Y, Masuda M. Total arch replacement for incomplete double aortic arch associated with patent ductus arteriosus in an adult. *Interact Cardiovasc Thorac Surg* 2009;8:269-71.
6. Lee ML. Diagnosis of the double aortic arch and its differentiation from the conotruncal malformations. *Yonsei Med J* 2007;48:818-26.
7. Mataciunas M, Gumbienė L, Liekienė D, Karalius R, Gutauskas M, Laucevičius A. Incomplete double aortic arch with atresia of the unusually branching distal left arch: non-invasive computed tomography diagnosis in a symptomatic adolescent. *Seminars in Cardiovascular Medicine* 2010;16:5.
8. Stoica SC, Lockowandt U, Couliden R, Ward R, Bilton D, Dunning J. Double aortic arch masquerading as asthma for thirty years. *Respiration* 2002;69:92-5.

**How to cite this article:**

Seker E, Atalar MH, Yucel S, Varol K, Sezer F. Final Diagnosis of Resisting Asthma: Incomplete Double Aortic Arch with Distal Left Arch Atresia. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 417-9.



## Tooth Extraction with Sedation in a Child with Duchenne Muscular Dystrophy

### Duchene Müsküler Distrofili Bir Çocukta Sedasyonla Diş Çekimi

Duchene Müsküler Distrofili Çocukta Diş Çekimi / Tooth Extraction in Duchenne Muscular Dystrophy

Dilek Günay Canpolat<sup>1</sup>, Mustafa Denizhan Yıldırım<sup>2</sup>, Mustafa Aydinbelge<sup>2</sup>, Kenan Cantekin<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Ağız, Diş ve Çene Cerrahisi AD, <sup>2</sup>Pedodonti AD, Erciyes Üniversitesi, Diş Hekimliği Fakültesi, Kayseri, Türkiye

Bu olgu 2013 yılı 47. Ulusal Tard Kongresi'nde poster bildirisi olarak sunulmuştur.

#### Özet

Duchene müsküler distrofi (DMD), çocukluk çağında en yaygın görülen müsküler distrofi formudur. X'e bağlı kalıtılıp, dystrofin genindeki defektten kaynaklanır. İşkelet kaslarında zayıflık, solunumsal semptomlar ve elektrokardiyografik değişiklikler küçük yaşlarda başlar. Erken çocukluk yaşında başlayan progresif proksimal güçsüzlük ve kardiyomiyopati ile karakterizedir. Bu hastalarda anestezi yönetimi kas güçsüzlüğü ve kardiyak problemler ve malign hipertermiye yatkınlık olması nedeniyle özellikleidir. İnhalasyon ajanları ve süksinilkolin gibi bazı tetikleyici ajanlar rabbomiyoliz, serum CK (kreatinin kinaz) düzeyinde artış, hiperkalemia ve kardiyak arreste neden olabilir. Bu nedenle tetikleyici ajanlardan kaçınılması önerilmektedir. Bu sunuda, DMD tanısı alan, kooperasyon kurulmadığı için diş çekişimi işlemi gerçekleştirilememiş çocuk olguda sedasyonla güvenli anestezi yaklaşımı tartışılmıştır.

#### Anahtar Kelimeler

Duchene Müsküler Distrofi; Sedasyon; Diş Çekimi

#### Abstract

Duchenne Muscular Dystrophy is most common muscular dystrophy form in childhood. It's an X-linked disorder that caused by dystrophin gene defect. Skeletal muscle weakness, respiratory symptoms and electrocardiographic differences begin in early ages. It's characterized by progressive proximal weakness occurs in early childhood and cardiomyopathy. Anesthesia management is important because of muscle weakness, cardiac problems and tendency to malignant hyperthermia. Some trigger agents such as inhalation anesthetics and succinylcholine may cause rhabdomyolysis, reduced level of serum creatinine kinase (CK) hyperkalemia and cardiac arrest. So it's suggested to avoid from trigger agents. In this case, a safe anesthetic method is discussed in a case whose dental treatment could not be performed because of noncooperation with patient.

#### Keywords

Duchene Muscular Dystrophy; Sedation; Dental Extraction

DOI: 10.4328/JCAM.2345

Received: 17.02.2014 Accepted: 09.04.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 420-2

Corresponding Author: Dilek Günay Canpolat, Erciyes Üniversitesi Diş Hekimliği Fakültesi, Ağız, Diş ve Çene Cerrahisi Hastanesi C Blok 1. Kat Talas, Kayseri, Türkiye.  
T: +90 3522076666 F: +90 3524380657 E-Mail: dgcanpolat@gmail.com

## Giriş

Duchene müsküler distrofi (DMD), çocukluk çağında en yaygın görülen müsküler distrofi formudur. Düz kas, iskelet kası, kalp kasında ilerleyici dejenerasyona neden olur. Erken çocukluk yaşlarında başlayan progresif proksimal güçsüzlük ve kardiyomiyopati ile karakterizedir. Kaslarda zayıflık 2-3 yaşlarında başlar, 5 yaşlarında genellikle diaframın etkilenmesi nedeniyle tekrarlayan pnömoniler ve solunum yetmezliğine yol açar. Otuzlu yaşlarında DMD'li hastaların % 90'ında kardiyak ve pulmoner yetmezlik gelişir. Bu hastalarda kas güçsüzlüğü ve kardiyak problemler nedeniyle anestezi yönetimi özellikledir. İnhalasyon ajanları ve süksinilkolin gibi bazı tetikleyici ajanlar rabbomiyoliz, serum CK (kreatinin kinaz) düzeyinde artış, hiperkalemi ve kardiyak arreste neden olabilir. Bu nedenle malign hipertermiyi tetikleyici ajanlardan kaçınılması önerilmektedir [1-3]. Propofolun riyanodin-Ca reseptörlerini aktive etmediği dolayısıyla malign hipertermiyi tetiklemediği gösterilmiştir [4]. Dental tedavilerin çoğu lokal anestezi ile yapılmaktadır. Ancak çocuk veya mental retardde hastalarla kooperasyon kurabilmek her zaman mümkün olmamaktadır. Bu durumlarda sedasyon veya genel anestezi gerekmektedir [5]. Bu olguda, DMD tanısı olan, kooperasyon kurulmadığı için diş çekimi işlemi gerçekleştirilememiş çocuk hasta sedasyonla güvenli anestezi yaklaşımı tartışılmıştır.

## Olgu Sunumu

Sekiz yaşında, 25 kg ağırlığında, beş yıl önce kas biyopsisi ile DMD tanısı almış erkek hastaya diş tedavisi planlandı. Hastanın aynı zamanda otizmi mevcuttu. Fizik muayenesinde Gowers arazı ve her iki alt extremitesinde psödohipertrofi vardı. Preoperatif değerlendirmesinde ekokardiyografi (EKO) bulguları normal olup kardiyak tutulum saptanmadı. Solunum fonksiyon testlerinde FEV1:1.41, FEV1/FVC: % 85 olup solunum yetmezliği yoktu. Ameliyat öncesi kan örneklerinde tam kan sayımı, koagülasyon testleri normaldi. Kan biyokimyasında AST:205 u/L, ALT:328 u/L, LDH: 1876 u/L iken diğer parametreleri normaldi. Hasta premedikasyon yapılmadan ameliyathaneye alındı. Damar yolu açılarak, standart monitorizasyon (noninvaziv kan basıncı, elektrokardiyogram, SPO2, solunum sayısı, nasal maske ile end-tidal CO2) sağlandı. Operasyon öncesi malign hipertermi ve rabbomiyoliz riskinden kaçınmak için tamamen temizlenmiş anestezi cihazında %100 oksijen (2L/dk) nasal maskeyle verildi. Hastanın spontan solunumu korunarak, başlangıçta 2 mg/kg propofol ile anestezi indüksiyonu sağlandı. Ramsey Sedasyon Skalası <4 olduğunda ya da hasta hareket ettiğinde başlangıç dozlarının yarısı tekrar verildi. Aralıklı bolus dozlar şeklinde toplam 110 mg propofol uygulandı. Çekim yapılacak dişlere 4 ml articain (Ultracepine DS) ile lokal anestezik infiltrasyonu uygulandıktan sonra, 85 ve 64 nolu dişlerine dolgu; 52,54,55,62,65,84 nolu dişlerine çekim uygulandı. Operasyon süresince vücut ısısı, noninvaziv kan basıncı, kalp atım hızı, SPO2 takip edildi. İşlem süresince kalp hızı 60-70 atım/dk, kan basıncı 88-104/50-68 mmHg, saturasyon düzeyi %97-100, ETCO2 35-45 mmHg, solunum hızı 14-20 solunum/dk düzeylerinde seyretti. Peroperatif dönemde herhangi bir komplikasyonla karşılaşmadı. İşlem sırasında ve sonrasında sekresyon artışı, laringospazm, hipoksi, aritmİ, bradikardi, hipotansiyon ve hipertansiyon gibi yan etkilere rastlanmadı. Ameliyat süresi toplam 20 dk olarak kaydedildi. Ramsey Sedasyon Skalası < 3 olunca derlenme odasına alındı. Derlenme oda-

sında nasal kanüle 2-3 L/dk oksijen verildi. Derlenme odasında takip edilen hasta 15 dakika sonra uyanık, alert ve sorulara cevap verir duruma gelince servise alındı. Postoperatif vücut ısısı, vital bulguları yakından takip edildi. İşlem sonrası ikinci saatte hasta oral sıvılarla beslendi. Postoperatif herhangi bir yan etki gözlenmedi. Vitalleri ve vücut ısısı stabil olan hasta postoperatif altıncı saatte sağlıkla taburcu edildi.

## Tartışma

Duchene Muscular Distrofi (DMD) X'e bağlı kalıtlı, distrofin genindeki defekttten kaynaklanan bir hastalıktır. İskelet kaslarında zayıflık, solunumsal semptomlar ve elektrokardiyografik değişiklikler küçük yaşlarda başlar. DMD'li hastalar 15-20'li yaşlarda solunumsal komplikasyonlar, konjestif kalp yetmezliği ve aritmiler nedeniyle kaybedilir [1-6]. Bu hastaların anestezi yönetimi malign hipertermi bakımından risklidir. Bazı araştırmacılar hayatı tehdit eden rabbomiyolize neden olacağı için inhalasyon ajanlarından sakınırken, bazıları kontrendike olduklarına dair ciddi kanıtlar olmadığını düşünmektedirler [7]. Depolarizan bir kas gevşetici olan süksinilkolin ciddi hiperkalemiye neden olup malign hipertermiyi tetikleyebilir. Bu nedenle süksinilkolinden sakınılmalıdır. Bu hastalarda; üst solunum yolu obstrüksiyonu, belli anestezik ajanlara karşı gelişen potansiyel fetal reaksiyonlar, ateletik, konjestif kalp yetmezliği, kardiyak disritmiler, solunum yetmezliği ve mekanik ventilatörden ayrılmada güçlük gibi sebeplerle genel anestezi yüksek risklidir [3].

Olgumuzda anestezi yönetimi planlarken, genel anesteziden ve endotrakeal entübasyondan kaçınıp, spontan solunumun korunarak gerçekleştirilen sedasyonun optimal seçenek olduğunu düşündük. Muskuler distrofili hastalarda girişimsel işlemler için sedasyon amacıyla çeşitli ajanlar kullanılmıştır. Propofol muskuler distrofili hastalarda genel anestezide güvenle kullanılan bir ajandır [8]. Biz olgumuzda, günbirlik hastada hem tahmini işlem süresinin kısa olması hem de genel anestezinin olası risklerinden kaçınmak amacıyla propofol kullandık. Böylece hastanın diş tedavisi konforlu ve güvenli bir şekilde gerçekleştirildi. İnhalasyon ajanlarıyla teması önlemek adına yüksek oksijen akımıyla sistemi temizleyip, vaporizatörü çıkardık, soda-lime ve hasta devresini değiştirdik. İşlem süresince ihtiyaç halinde propofol aralıklı bolus uygulamalarla tekrarladık. İyi bir doz titrasyonu sayesinde propofolun hemodinamik ve solunumsal fonksiyonlar üzerindeki olası yan etkileri ortaya çıkmadı. Ayrıca propofolun kısa etki süresi nedeniyle derlenme ve hastaneden çıkış çabuk oldu. Antiemetik etkisi sayesinde bulantı kusma yaşamadı. Bunun yanında maling hipertermi veya benzeri hiperdinamik durumlardan sakınmış olduk.

Sonuç olarak; DMD'li hastalarda anestezi olası maling hipertermi riski ve kas güçsüzlüğü nedeniyle özellikle dir. Bu hastalarda maling hipertermiyi tetikleyen ajanlardan kaçınılmalıdır. Biz olgumuzda, hastamızın kooperasyon kurulmadığı için gerçekleştirilemeyen diş tedavisini, propofol ile sedasyon sağlayarak konforlu bir şekilde gerçekleştirdik ve maling hipertermi bakımından güvenli bir yöntem tercih ederek komplikasyon gelişme riskini en aza indirmiştir.

## Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

**Kaynaklar**

1. Connuck DM, Sleeper LA, Colan SD, Cox GF, Towbin JA, Lowe AM, et al. Pediatric Cardiomyopathy Registry Study Group. Characteristics and outcomes of cardiomyopathy in children with Duchenne or Becker muscular dystrophy: a comparative study from the Pediatric Cardiomyopathy Registry. *Am Heart J* 2008;155:998-1005.
2. Segura LG, Lorenz JD, Weingarten TN, Scavonetto F, Bojanic K, Selcen D, et al. Anesthesia and Duchenne or Becker muscular dystrophy: review of 117 anesthetic exposures. *Paediatr Anaesth* 2013;23(9):855-64.
3. Gurnaney H, Brown A, Litman RS. Malignant hyperthermia and muscular dystrophies. *Anesth Analg* 2009;109:1043-8.
4. Fruen BR, Mickelson JR, Roghair TJ, Litterer LA, Louis CF. Effects of propofol on  $Ca^{2+}$  regulation by malignant hyperthermia-susceptible muscle membranes. *Anesthesiology* 1995;82:1274-82.
5. Metin Alkan, Gülay Kip, Saziye Şahin, Mustafa Sancar Ataç, Yeliz Kılıç. Mental Retarde Hastalardaki Sedasyon Deneyimlerimiz. *JCAM* 2013; DOI: 10.4328/JCAM.2111
6. American Academy of Pediatrics Section on Cardiology and Cardiac Surgery. Cardiovascular health supervision for individuals affected by Duchenne or Becker muscular dystrophy. *Pediatrics* 2005;116:1569-73.
7. Goresky GV, Cox RG. Inhalation anesthetics and Duchenne's muscular dystrophy. *Can J Anaesth* 1999;46:525-8.
8. Kawai H, Tanaka K, Yamazaki S. Continuous infusion propofol general anesthesia for dental treatment in patients with progressive muscular dystrophy. *Anesth Prog* 2005;52:12-6.

**How to cite this article:**

Canpolat DG, Yıldırım MD, Aydınbelge M, Çantekin K. Tooth Extraction with Sedation in a Child with Duchenne Muscular Dystrophy. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 420-2.



## Optical Coherence Tomography Findings in Unilateral Peripapillary Myelinated Retinal Nerve Fibers

### Tek Taraflı Peripapiller Miyelinli Retina Sinir Liflerinde Optik Koherens Tomografi Bulguları

Myelinli Sinir Liflerinde OCT Bulguları / OCT Findings in Myelinated Retinal Nerve Fibers

Alime Gunes<sup>1</sup>, Seden Demirci<sup>2</sup>, Mustafa Gunes<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Department of Ophthalmology, <sup>2</sup>Department of Neurology, <sup>3</sup>Department of Urology,  
Suleyman Demirel University Faculty of Medicine, Isparta, Turkey

#### Özet

On dokuz yaşında bir erkek hasta, erken çocukluğundan beri olan sağ gözünde görme azlığı ile başvurdu. Düzeltilmiş en iyi görme keskinliği, sağ gözde 10 cm' den parmak sayma ve sol gözünde 1.0 idi. Relatif afferent pupil defekti yoktu; refraksiyon değerleri, sağ gözde -6.50 -1.25 x 110 ve sol gözde -0.25 değerindeydi. Biomikroskopik müyeyene ve göz içi basıncı her iki gözde normaldi. Fundus muayenesinde, sağ gözde geniş, çukurlaşmış disk, üst vasküler arkut boyunca uzanan aşırı myelinli peripapiller retina sinir lifleri mevcuttu. Optik koherens tomografi, sağ gözde üst kadranda incelme ile birlikte normal ortalama peripapiller retina sinir lifi tabakası kalınlığı (RSLT) ve abnormal foveal kontur göstermektedir. Myelinli retinal sinir lifleri, ortalama peripapiller RSLT kalınlığında değişikliklere neden olmasa da, abnormal foveal morfoloji ve anizometrik miyopi ile ciddi görme kaybına neden olabilir.

#### Anahtar Kelimeler

Myelinli Retina Sinir Lifleri; Optik Kohorens Tomografi; Retina Sinir Lifi Tabakası Kalınlığı

#### Abstract

A 19-year-old male presented with low vision in the right eye since early childhood. Best corrected visual acuity was counting fingers at 10 cm and 1.0 in the right and left eyes. There was no relative afferent pupillary defect; refraction was -6.50 -1.25 x 110 and -0.25 in the right and left eyes. Biomicroscopic examination and intraocular pressures were normal in both eyes. On fundus examination, there was large, cupped disk, extensive peripapillary myelinated retinal nerve fibers extending along superior vascular arcade in the right eye. Optical coherence tomography showed normal average peripapillary retinal nerve fiber layer (RNFL) thickness with thinning in superior quadrant and abnormal foveal contour in the right eye. Although MRNF not cause changes in average RNFL thickness, may cause to serious vision loss by abnormal foveal morphology and anisometropic myopia.

#### Keywords

Myelinized Retinal Nerve Fibers; Optic Coherence Tomography; Retinal Nerve Fiber Layer Thickness

DOI: 10.4328/JCAM.2444

Received: 28.03.2014 Accepted: 11.04.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 423-5

Corresponding Author: Alime Gunes, Department of Ophthalmology, Suleyman Demirel University Faculty of Medicine, 32260, Isparta, Turkey.

GSM: +905054828345 E-Mail: dralimefefer@hotmail.com

## Introduction

Myelination of the optic nerve begins at the 32nd pregnancy week from the lateral geniculate nucleus and finishes at term. It arrives the lamina cribrosa a short time after birth [1]. Myelinated retinal nerve fibers (MRNF) are not normally found in the human retina, but histopathologic studies have demonstrated that pieces of MRNF contain oligodendrocytes [2]. Williams suggested that a defect in the lamina cribrosa would cause entry of oligodendrocytes into the retina [2]. It was supported by extensive retinal myelination in animals with little or no lamina cribrosa [2].

Anisometropic myopia, strabismus, abnormal foveal morphology, amblyopia and reduced vision may be associated with MRNF [4,5].

In this report, we present optical coherence tomography (OCT) findings in a patient with unilateral peripapillary myelinated retinal nerve fibers.

## Case Report

A 19-year-old male presented with low vision in the right eye since early childhood. Best corrected visual acuity was counting fingers at 10 cm and 1.0 in the right and left eyes. Pupils did not show relative afferent pupillary defect; refraction was -6.50 -1.25 x 110 and -0.25 in the right and left eyes. Biomicroscopic examination and intraocular pressures were normal in both eyes. On fundus examination, there was large, cupped disk, extensive peripapillary MRNF extending along superior vascular arcade in the right eye (Figure 1). Optical coherence tomography (OCT) (Spectral OCT SLO, OPKO/OTI Instrumentation, Miami, FL, USA) showed normal average retinal nerve fiber layer (RNFL) thickness with thinning in superior quadrant (Figure 2) and abnormal foveal contour in the right eye (Figure 3). In addition, our patient has had epilepsy and chronic renal failure secondary to vesicoureteral reflux.

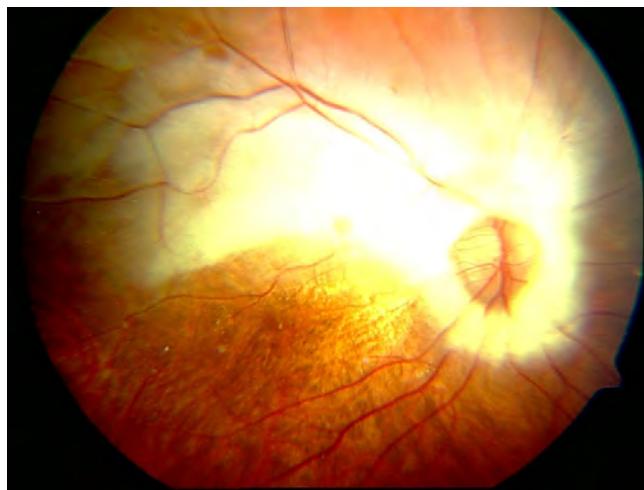


Figure 1. Fundus photography of the patient's right eye showed large, cupped disk, extensive peripapillary myelinated retinal nerve fibers extending along superior vascular arcade.

## Discussion

Peripapillary MRNF can be congenital or acquired. Congenital retinal myelination is a developmental anomaly and the incidence in the population is 0.3-0.6%. Coexistence of MRNF and ipsilateral high myopia, amblyopia, strabismus, optic disk hypo-

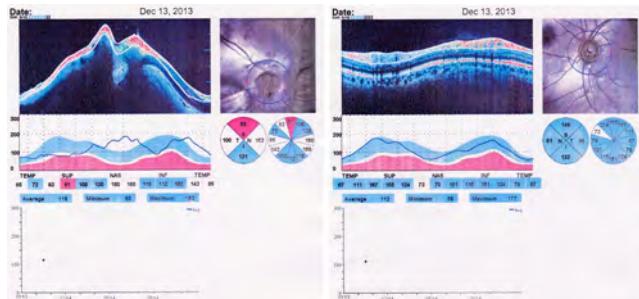


Figure 2. Optical coherence tomography showed normal average retinal nerve fiber layer thickness with thinning in superior quadrant in right eye and normal average retinal nerve fiber layer thickness in left eye.

D.O.B.: Dec 13, 1995 Ref. Physician: Pathology:

Date: Dec 13, 2013

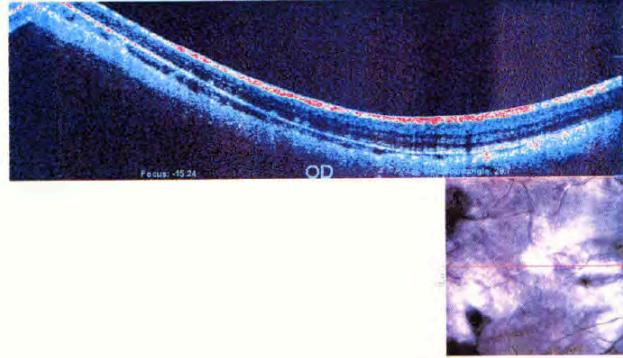


Figure 3. Optical coherence tomography showed abnormal foveal contour in right eye.

plasia and vision loss has been reported in the literature [4,5]. Gharai et al. evaluated MRNF with OCT and reported that peripapillary MRNF involving the macula can cause foveal ectopia, deprivation amblyopia and vision loss [6]. They suggested that foveal position can be detected only by OCT.

In our case, OCT showed normal average RNFL thickness with thinning in superior quadrant and abnormal foveal contour in the right eye. Peripapillary MRNF extending along superior vascular arcade can explain the decreased thickness of superior RNFL.

In addition, our patient has had epilepsy and chronic renal failure secondary to vesicoureteral reflux, but this association has never been reported in the literature.

In this case, low vision in the right eye with MRNF may have been due to foveal abnormality, anisometropic amblyopia, or optic disk hypoplasia.

To the best of our knowledge, this is the first report of the OCT findings including peripapillary RNFL in a patient with MRNF. Although MRNF not cause changes in average RNFL thickness, may cause to serious vision loss by abnormal foveal morphology and anisometropic myopia.

## Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

## References

1. Magoon EH, Robb RM. Development of myelin in human optic nerve and tract. A light and electron microscopic study. *Arch Ophthalmol* 1981;99(4):655-9.
2. Straatsma BR, Foos RY, Heckenlively JR, Taylor GN. Myelinated retinal nerve fibers. *Am J Ophthalmol* 1981;91(1):25-38.
3. Williams TD. Medullated retinal nerve fibers: Speculation on their cause and presentation of cases. *Am J Optom Physiol Opt* 1986;63(2):142-51.
4. Lee MS, Gonzalez C. Unilateral peripapillary myelinized retinal nerve fi-

bers associated with strabismus, amblyopia, and myopia. Am J Ophthalmol 1998;125(4):554-6.

5. Yalcin E, Balci O, Akingol Z. Association of extensive myelinated nerve fibers and high degree myopia: Case report. Indian J Ophthalmol 2013;61(10):606-7.

6. Gharai S, Prakash G, Ashok Kumar D, Jacob S, Agarwal A, Arora V. Spectral domain optical coherence tomographic characteristics of unilateral peripapillary myelinated retinal nerve fibers involving the macula. J AAPOS 2010;14(5):432-4.

**How to cite this article:**

Gunes A, Demirci S, Gunes M. Optical Coherence Tomography Findings in Unilateral Peripapillary Myelinated Retinal Nerve Fibers. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 423-5.



## Bell Palsy and Acupuncture Treatment

### Bell Palsi ve Akupunktur Tedavisi

Bell Palsi ve Akupunktur / Bell Palsy and Acupuncture

Betül Battaloğlu İnanç  
Mardin Artuklu University, Health Higher School, Meydanbaşı, Mardin, Turkey

#### Özet

22 yaşında, kız, ebelik bölümü öğrencisi, Bell paralizi House-Breckman Evre 6 tanısı ile kortikosteroid ve antiviral ajanla tedavi edildi. 6 hafta sonra, House –Breckman Evre 3 olan ve düzelmeyen hastaya, akupunktur tedavisi uygulandı. Akupunktur tedavisinde, lokal ve distal akupunktur noktaları, kulakta, vücutta ve yüzde kullanıldı. Kulak akupunkturu, kulak dedeksiyonu ile iki seans uygulandı. 6 seans vücut ve yüz akupunktur noktalarına elektro-akupunktur uygulandı. 10 seans içinde, felçli yüz yarısında tamamen düzelmeye oldu. ST2 noktasında küçük bir ekimoz oluştu. Yüz simetrisi, yetişkinler, çocuklar ve hamile kadınlar için kişiler arası cazibe de etkilidir. Medikal seçenekler, sekel Bell paralizili hastalarda sınırlı kalmaktadır. Klinik ve elektrofizyolojik daha çok çalışmalarla, akupunkturun Bell paralizisindeki etkinliği gösterilmelidir.

#### Anahtar Kelimeler

Akupunktur; Bell Palsi; Tedavi

#### Abstract

A 22-year-old female patient, a midwifery student, had treatment with corticosteroid and antiviral agents as soon as Bell Palsy (BP) was diagnosed (House-Breckman stage 6). Six weeks later, patient didn't recover, while in House-Breckman stage 3, acupuncture was performed and local and distal acupoints were used with ears, body and face. Ear acupuncture point was used two times with detection. In the course of six sessions body and face points were stimulated by electroacupuncture. After ten acupuncture treatments, the subjective symptoms and the facial motion on the affected side improved. There was an spotting ecchymosis the ST2 points on. The symmetry of the face is a determinant of facial charm and influences interpersonal attraction for adults, children and pregnant women. Medical options for the sequelae of BP are limited. Acupuncture's effectively in Bell palsy patients' should be shown with more clinical and electrophysiological studies.

#### Keywords

Acupuncture; Bell's Palsy; Treatment

DOI: 10.4328/JCAM.2465

Received: 06.04.2014 Accepted: 17.04.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 426-8

Corresponding Author: Betül Battaloğlu İnanç, Mardin Artuklu University, Health Higher School, 47100, Meydanbaşı, Mardin, Turkey.

T: +90 4822121395 GSM : +905052685539 F: +904822126947 E-Mail :betulbattaloglu00@gmail.com

## Introduction

The incidence of Bell's palsy globally is approximately 30/100000 people per year. The prognosis is good, and approximately 70% of patients recover completely within 6 months without treatment. However, 30% of BP patients have sequelae, such as residual paresis (29%), contracture (17%), and facial spasm or synkinesis (16%). The incomplete recovery of facial symmetry can have a long-term impact on the quality of life, such as difficulty with drinking, eating and speaking, as well as psychosocial problems [1]. For children a study has indicated a favorable prognosis. But even with steroid therapy some were healed with sequelae [2]. Reports have shown that women of reproductive age are affected two to four times more often than men of the same age, and pregnant women 3.3 times more often than non-pregnant women. Corticosteroids in pregnancy are controversial [3]. Corticosteroids are currently the drug of choice when medical therapy is needed. Antivirals, in contrast, are not superior to placebo according to the most reliable studies. At the time of publication, there is no consensus as to the benefit of acupuncture or surgical decompression of the facial nerve [4]. The symmetry of the face is important for facial beauty and influences personal attraction for everyone. So, acupuncture treatment can be used to stop the developing sequelae.

## Case Report

November 2013 a 22- year-old female patient presented with severe retroauricular pain and lingering facial movement on left hemifacial area. She was subsequently diagnosed with BP in the hospital. She was treated with corticosteroid and antiviral agents and lubricating drops as soon as diagnosed. Oral prednisone and acyclovir were used in descending doses. The patient used these drugs, but after six weeks her illness regressed to House-Breckman stage 3. She was restless with her face asymmetry and facial inactivity. It was decided to try acupuncture treatment. Whole inserted needle were disposable, 0.25\*25 mm. size and inserted perpendicular to skin. Sessions were for a duration of 30 minutes two times in a week. ACTH point, Interferone point, Main Omega point, Anti aggression point and Anti depression point were detected in the dominant ear. Gold plated needles were used ACTH, Interferone, Main Omega and Anti depression points. A silver plated needle was used Anti aggression point. These points responded in the first two sessions but not the third. The whole body and face points inserted needle by steel needles. ST 36, LI4 and LIV3 points were used bilaterally as distal acupoints. LI4 and LIV3 were used if there was pain and used only four sessions. ST 36 was used in every session with electroacupuncture. ST2, ST3, ST4, ST5, ST6, ST7, LI20, BL2, TW23, GB1, GB14, SI18, CV24, GV26 points were selected and the affected face side was stimulated with electroacupuncture. Electroacupuncture was used depending on patient durability using by 2-4 hertz stimulation and continuous wave for six sessions. After these when muscle tonus came recovery, four sessions cosmetic acupuncture applied to lift up for the face. BL3, BL4, extrensek 5 was used bilaterally, GV24, GB2, ying tang, TW 17, TW21, SI19 were used on the selected affected face points side. In addition, 0.16\*7 mm. needles were used on the affected face points side, and three separate needles sank

to extrensek 2, 3, 4 and local eye and mouth points Figure 1. As we told, face symmetry is a determinant of facial beauty Figure 2, 3.



Figure 1. Patient is receiving acupuncture in the clinic.

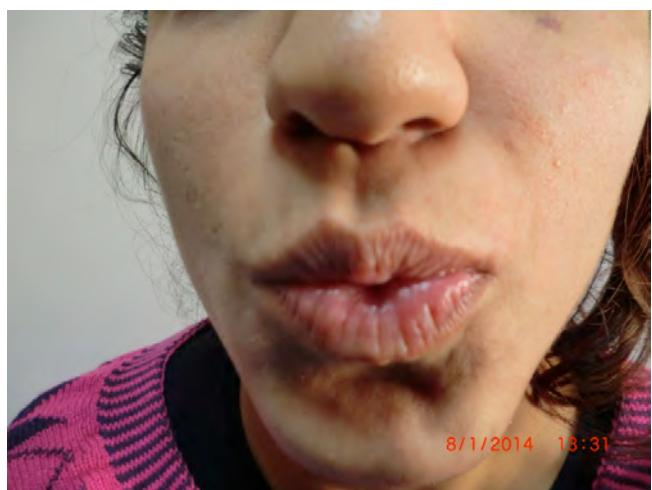


Figure 2. After acupuncture treatments.



Figure 3. After acupuncture treatments.

## Discussion

The mechanism of Bell's palsy is an inflammatory process of the facial nerve leading to its compression along this narrow segment of the fallopian canal [4]. Clinical trials have found that acupuncture is at least as effective as corticosteroids in treating Bell's palsy [5], and that electroacupuncture treatment at the

Zusanli ST36 acupoints of rats could restore the balance to the Th1/Th2/Th17/Treg T helper cell responses by stimulating the hypothalamus to increase ACTH production. This is of importance since the hypothalamus is considered to be a key regulator of various physiological and pathophysiological processes including emotion, autonomic activity, and pain.  $\beta$ -endorphin is an important opioid present in brain, and electroacupuncture stimulation could serve as an analgesic function by activating ACTH and/or  $\beta$ -endorphin release by the brain so resulting in increased hormone release [6]. In this respect ACTH and ST 36 points can be used to reduce this inflammation, like steroids. Although, the etiology of BP is unknown but viral infection, vascular ischemia, or autoimmune disease has been postulated as possible pathomechanisms [7], for this reason it is preferred to use Interferone and Main Omega points to treat viral infection and stimulate body immune system. In order to reduce patient's upset Anti aggression and Anti depression points are used. And it is thought that endomorphin-1, beta endorphin, encephalin, and serotonin levels increase in plasma and brain tissue through acupuncture application. Increases of endomorphin-1, beta endorphin, encephalin, serotonin, and dopamine cause analgesia, sedation, and recovery in motor functions. And they also have immunomodulator effects on the immune system [8]. Face acupoints were preferred on or near locations acupoints, especially impaired movements area. Because, a collection of the activated neural and neuroactive components distributed in the skin, muscle, and connective tissues surrounding the inserted needle is defined as a neural acupuncture unit (NAU). The neuroactive components are mast cells, sympathetic nerve-rich blood vessels, and small lymphatic vessels. In addition to mast cells that release many neuroactive mediators, including histamine, substance P (SP), and other immune factors via a degranulation mechanism in response to acupuncture stimulation, other non-neuronal cells, including macrophages, fibroblasts, lymphocytes, platelets, and keratinocytes are also involved in the modulation of local and afferent signals of NAUs. These cells release various transmitters, modulators, inflammatory and immune factors, which directly or indirectly act at corresponding receptors on the surface of peripheral afferent fibers [9]. For stimulated these neural acupuncture unit effectively used electroacupuncture. This application is, significant clinical efficacy on peripheral facial paralysis and there are no any significant differences in the efficacy among the different waveforms [10]. This is especially true for muscles under continuous tonic contraction. The inhibition of the muscle tone by acupuncture stimulation may be related to the functional recovery of the facial nerve and associated muscles [11]. Also, the post-stroke depression (PSD) can be ameliorated by electro-acupuncture treatment and that the PSD improvement of stroke patients with good motor grade is greater than that of stroke patients with poor motor grade [12]. As a result, we evoked the suffering damage or not to recovery completely nerves, also, acupuncture arranged the humoral mechanism. Our aim is to evaluate the safety and efficacy of acupuncture on the sequelae of BP, patients' happiness and face's beauty. Especially, if patients do not want to use medical treatments or their special conditions (child, pregnancy, another disease or diseases) do not suitable for to use medical treatments or if there was a complications, acupuncture

should prefered. We thought that, all methods should use for the disease treatment is important. But, of course, studies may require large, randomized, and placebo-controlled clinical trial with sufficient, efficacy and its mechanisms follow-up time. And to choose a valid and credible control procedure and to follow CONSORT checklist and STRICTA recommendations will improve the quality of acupuncture studies [13].

### Competing interests

The author declare that they have no competing interests.

### References

- 1.Kwon HJ, Kim JI, Lee MS, Choi JY, Kang S, Chung JY, et al. Acupuncture for sequelae of Bell's palsy: a randomized controlled trial protocol. *Trials* 2011; 12: 71-7.
- 2.Sayin İ, Yazıcı ZM, Yarar Ç, Erdim İ, Demir F, Kayhan FT. Çocuklarda idiyopatik fasikal paralizi. *Bakırköy Tip Dergisi* 2012; 8: 107-10.
- 3.Cohen Y, Lavie O, Granovsky-Grisaru S, Aboulafia Y, Diamant YZ. Bell palsy complicating pregnancy: a review. *Obstet Gynecol Surv* 2000; 55(3): 184-8.
- 4.Zandian A, Osiro S, Hudson R, Ali IM, Matusz P, Tubbs SR, et al. The neurologist's dilemma: A comprehensive clinical review of Bell's palsy, with emphasis on current management trends. *Med Sci Monit* 2014; 20: 83-90.
- 5.Mooney T. Diagnosis and management of patients with Bell's palsy. *Nursing Standart/RN Publishing* 2013; 28(14): 44-9.
- 6.Liu Y, Wang H, Wang X, Mu L, Kong Q, Wang D, et al. The mechanism of effective electroacupuncture on T cell response in rats with experimental autoimmune encephalomyelitis. *PLoS One*. 2013; 8(1): e51573.
- 7.Finsterer J. Management of peripheral facial nerve palsy. *Eur Arch Otorhinolaryngol* 2008; 265:743-52.
- 8.Cabioğlu MT, Ergene T, Tan U. The mechanism of acupuncture and clinical applications. *Int J Neurosci* 2006; 116(2): 115-25.
- 9.Zang ZJ, Wang XM, McAlonan GM. Neural acupuncture unit: A new concept for interpreting effects and mechanisms of acupuncture. *Evidence-Based Complementary and Alternative Medicine* 2012; 429412: 1-23.
- 10.Liu LA, Zhu YH, Li OH, Yu ZL. Comparison on efficacy and the safety evaluation on peripheral facial paralysis treated with electroacupuncture of different waveforms. *Zhongguo Zhen Jiu* 2012; 32(7): 587-90.
- 11.Kim JI, Lee MS, Choi TY, Lee H, Kwon HJ. Acupuncture for Bell's Palsy: A Systematic Review and Meta-analysis. *Chin J Integr Med* 2012; 18(1): 48-5.
- 12.Youn J-I, Sung K-K, Song B-K, Kim M, Lee S. Effects of electro-acupuncture therapy on post-stroke depression in patients with different degrees of motor function impairments: a pilot study. *J Phys Ther Sci* 2013; 25: 725-28.
- 13.Acar HV. Placebo Problem In Acupuncture Studies and Interventions to Increase Report Quality. *J Clin Anal Med* 2012; 3(3): 364-9.

### How to cite this article:

İnanç BB. Bell Palsy and Acupuncture Treatment. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 426-8.



## Microperimetry Findings of a Patient with Macular Edema Secondary to Retinitis Pigmentosa

### Retinitis Pigmentozaya İkincil Makula Ödemli Olguda Mikroperimetri Bulguları

Retinitis Pigmentozalı Olguda Mikroperimetri / Microperimetry in a Patient with Retinitis Pigmentosa

Cem Özgönül<sup>1</sup>, Tarkan Mumcuoğlu<sup>2</sup>, Gökçen Gökcə<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Anıttepe Jandarma Dispanseri, Göz Hastalıkları Polikliniği, Çankaya, Ankara,

<sup>2</sup>Gülhane Askeri Tıp Akademisi, Göz Hastalıkları AD., Etilk, Ankara,

<sup>3</sup>Sarıkamış Asker Hastanesi, Göz Hastalıkları Servisi, Kars, Türkiye

#### Özet

Altmış dokuz yaşında retinitis pigmentosa tanısı olan erkek hasta poliklinimize başvurdu. Yapılan muayenede fundoskopi retinitis pigmentosa ile uyumluydu. Makula ödemi saptanan hastaya, maküler anatominin incelenmesi için optik koherens tomografi ve maküler fonksiyonlar için mikroperimetri testleri uygulandı. Optik koherens tomografi ile makulada kronik ödemi destekler bulgular saptandı. Mikroperimetri ile santral 20 derecelik alanda ortalama retinal duyarlılık her iki gözde 8-10 desibel ölçüldü. Bu makalede retinitis pigmentosa zemininde kronik makula ödemi olan bir olgunun, retinal fonksiyonların değerlendirilmesinde mikroperimetrinin önemini vurgulanması amaçlanmıştır.

#### Anahtar Kelimeler

Makula Ödemi; Mikroperimetri; Retinitis Pigmentosa

#### Abstract

Sixty-nine year old male patient with a diagnosis of retinitis pigmentosa admitted to our clinic. In ophthalmologic examination fundoscopy was compatible with retinitis pigmentosa. For evaluation of macular edema, optical coherence tomography and microperimetry were performed to examine the structure and function of the macula. Chronic macular edema findings were obtained with optical coherence tomography. By microperimetry, mean retinal sensitivity in the central 20 degrees of both eyes was measured 8-10 decibels. The aim of this study is, to emphasize the importance of microperimetry for the evaluation of retinal function in a patient with macular edema secondary to retinitis pigmentosa.

#### Keywords

Macular Edema; Microperimetry; Retinitis Pigmentosa

DOI: 10.4328/JCAM.2462

Received: 05.04.2014 Accepted: 18.04.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 429-31

Corresponding Author: Cem Özgönül, Anıttepe Jandarma Dispanseri, Göz Hastalıkları Polikliniği, Gençlik Cd.88. Sk., Anıttepe, Çankaya, Ankara, Türkiye.

GSM: +90555584436 E-Mail: cemozgonul@hotmail.com

## Giriş

Retinitis pigmentosa (RP) terimi, esas olarak fotozeptörlerin ve retina pigment epitelinin (RPE) etkilendiği heterojen bir grup genetik retinal bozuklukları kapsamaktadır [1]. RP yavaş ilerleyen bir hastalık olup tipik olarak rodler, konlardan önce etkilenir. Dolayısıyla periferik görüş ve gece görüşü bozulmuş olmasına rağmen, ileri evrelere kadar merkezi görme korunabilir. RP olgularda izole olarak gelişebildiği gibi, bir takım sistemik hastalıklarla da beraberlik gösterebilir. Otozomal dominant, otozomal resesif ve X'e bağlı kalıtlıabilen ve RP ile ilişkilendirilmiş çok sayıda gen mevcuttur. Hiçbir aile hikayesi bulunmadan da RP gelişen olgular mevcuttur. RP'li olgularda kistoid makula ödemi (KMÖ) ve epiretinal membran gibi komplikasyonlar geliştiğinde beklenmedik şekilde merkezi görme de etkilenebilir [2]. RP'nin iyi bilinen komplikasyonlarından biri olan KMÖ, yaklaşık %10-40 olguda görülmekte olup, hastalarda gelişen bulanık görme ve görme keskinliğinde azalmanın yanı sıra ileri evrede gelişen atrofik fovea değişikliklerinden de sorumludur [3]. RP'li olgularda gelişen KMÖ yönetiminde çok çeşitli tedavi modaliteleri mevcut olmakla beraber, genel kabul görmüş olanları arasında sistemik ve topikal karbonik anhidraz inhibitörleri, intravitreal triamsinolon asetonid ve vitrektomi uygulamaları sayılabilir [4].

Geçmiş birçok çalışmada, retinal fonksiyonun değerlendirilmesi için en iyi düzeltilmiş görme keskinliği (EIDGK) kullanılmıştır. Ancak günümüzde makulopatili olgularda retinal fonksiyonu değerlendirme yöntemi olarak mikroperimetri ile retinal duyarılık ölçülebilmektedir.

Bu makalede yıllar önce RP tanısı almış ve üç yıldır KMÖ mevcut olan bir olguda mikroperimetri bulgularının sunulması amaçlanmıştır.

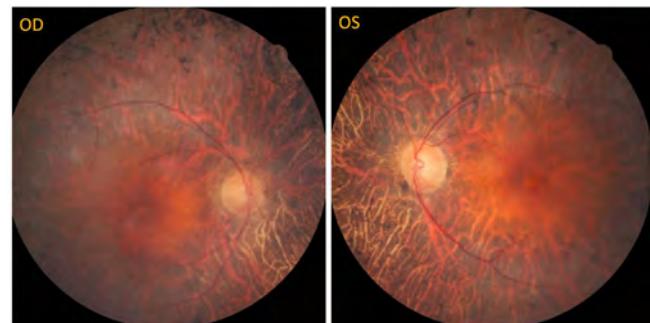
## Olgu Sunumu

Altıyaşmış dokuz yaşında erkek hasta yaklaşık 20 yaşından beri RP tanısı olduğunu ve düzenli bir takibi olmadığını belirterek muayene olmak üzere polikliniğimize başvurdu. Herhangi bir sistematik hastalığı olmadığını belirten hastanın yapılan oftalmolojik muayenesinde, EIDGK her iki gözde snellen eşeliyle 0.7 olup refraksiyon sağ gözde  $-0.75 \times 105$  diyoptri, sol gözde emetroptu. Biyomikroskopide her iki gözde pupil kenarlarında psödoeksfolasyon, kapsüler kese içinde arka kamara göz içi merceği, iridodonezis ve psödofakonezis mevcut olup ilave olarak sağ gözde göz içi merceği kapsülüyle birlikte temporale sublukse olarak izlendi. Fundoskopide her iki gözde yaygın RPE atrofisi, midperiferde tipik konsantrik şekilli, kemik spikülü tarzında pigmentasyon, vasküler yapılarda incelme, tipik balmumu optik disk görünümü ve makulada ödem izlenmekteydi (Resim-1). Goldman applanasyon tonometresiyle ölçülen göz içi basıncı sağ gözde 15 mmHg, sol gözde 18 mmHg'dı.

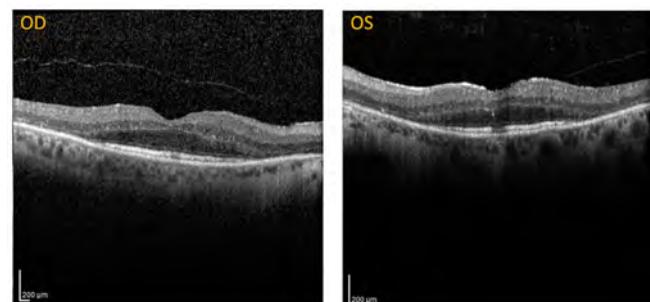
Hastaya spektral domain optik koherens tomografi (SD-OKT) ile makula incelemesi yapıldı. Her iki gözde kronik kistoid makula ödemi mevcut olup iç segment/dış segment birleşimi (İS/OS bandı) devamlılığını koruyordu. İlave olarak sol gözde, belirgin bir traksiyon etkisi olmamakla birlikte foveada iç limitan membran kalınlaşması mevcuttu (Resim-2).

Hastanın mikroperimetri testi MP-1 ile yapıldı. Zemin aydınlatması 4 apostilb olarak ayarlandı. Gösterim zamanı 200 milisaniye olan 33 adet Goldman III uyarımı santral 20 derecelik alan-

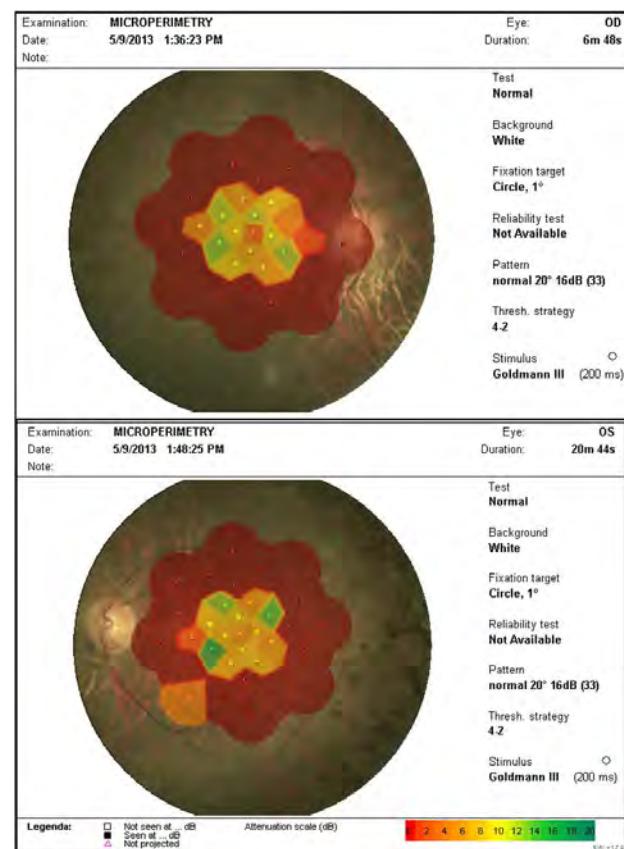
da 4-2 stratejide uygulandı. Uyarıların şiddeti 0 desibel ile 20 desibel aralığındaydı. Fiksasyon için 1 derece genişliğinde kırmızı halka işaretini kullanıldı. Her iki gözde de ölçüm alanının perifer kısmında retinal duyarılık 0 desibel olarak saptandı. Sağ gözde en yüksek retinal duyarılık 13 desibel, sol gözde ise 16 desibel olarak ölçüldü. Her iki gözde fiksasyon santralize ve stabiıldı (Resim-3).



Resim 1. Fundoskopide tipik RP bulgularına ilave makula ödemi izlenmektedir.



Resim 2. SD-OKT ile yapılan makula incelemesinde her iki gözde makula ödemi, İS/OS bandının devamlılığını koruduğu ve sol gözde iç limitan membran kalınlaşması izlenmektedir.



Resim 3. Mikroperimetri ile her iki gözde de foveanın periferinde retinal duyarılığının olmadığı saptandı.

Hastamız, makula ödeme yönelik tedavi önerildiğinde, görme seviyesinden memnun olduğunu, daha önce topikal dorzolamid ve sistemik asetazolamid tedavisi aldığı, sonrasında göz içi enjeksiyon önerildiğini ancak kendisinin kabul etmediğini belirtip tedaviye yönelik herhangi bir girişimi yine kabul etmeyeceğini belirtmiştir.

### Tartışma

Sunduğumuz olgu tipik bir KMÖ gelişimi ile kompleks olmuş RP olgusudur. RP'li olgularda merkezi görmenin yitirilmesine sebep olabilecek en önemli sebeplerden biri olan KMÖ gelişimi, bu olguda belirgin görme keskinliği düşüşüne sebep olmamıştır. Merkezi görmenin korunmasına sebep, SD-OKT ile saptadığımız, İS/OS bandının korunmuş olması olarak yorumlanabilir.

Olgumuzda makular duyarlılığın değerlendirilmesine yönelik güncel bir yöntem olan MP-1 mikroperimetri testi yapılmıştır. Günümüzde artık bilinmektedir ki, görme keskinliğinin iyi düzeyde olması retinal duyarlılığın da iyi olacağı anlamına gelmez. Yapılan bir çalışmada, santral seröz koryoretinopati gelişimi sonrası, makula normal yapısal görünümü kavuşup görme keskinliği normal düzeye gelmiş olsa bile, retinal duyarlılığın düşük kaldığı saptanmıştır [5]. Son zamanlarda, mikroperimetri, RP'li olgularda yapılan klinik araştırmalar için makular fonksiyonun potansiyel bir göstergesi olarak kullanılmaktadır [6]. Yine bizim olgumuzda saptadığımız retinal duyarlılık paternine benzer şekilde, RP'li olgular üzerinde yapılan bir çalışmada foveal ve parafoveal bölgede normal retinal duyarlılıklar saptanırken, merkezden uzaklaşıkça retinal duyarlılığın azlığı saptanmıştır [6]. RP'nin yanı sıra, yaşa bağlı makula dejenerasyonu gibi hastalıklarda da mikroperimetri sayesinde, yapısal ve morfolojik değişikliklerin fonksiyon ile ilişkisi ortaya konabilmektedir [7].

Makula ödemi olgulardaki retinal duyarlılık ve makula kalınlığı arasında korelasyon olduğunu belirten yazarlar da mevcuttur [8]. Bu çalışmalara göre makula kalınlığı arttıkça retinal duyarlılık bekleneceği üzere düşmektedir. Yine yazarların önerilerine göre, mikroperimetri, görme keskinliği ve OKT kalınlığına yönelik daha prediktif ve kantitatif fonksiyonel ölçüm değerleri sunduğu için, görme keskinliğinden daha değerli bir fonksiyonel test olarak değerlendirilmektedir [8].

Mikroperimetri retinal duyarlılığın yanında, retinal fiksasyon özelliklerine yönelik, fiksasyon yeri ve stabilitesi hakkında da bilgiler vermektedir. Fiksasyon yeri ve stabilitesi, hastanın görme kalitesini ve özellikle okuyabilme yeteneğini saptamamıza yarayacak olan, hastanın yaşam kalitesiyle direkt ilişkili parametrelidir. Görme keskinliği tam düzeyinde olan olgularda bile, mikroperimetri ile saptanan retinal duyarlılık 1 desibelden 20 desibe kadar değişkenlik gösterebilmektedir [8]. Dolayısıyla RP'li olgularda görme keskinliği iyi düzeylerde olsa bile hastalar subjektif şikayetlerle başvurabilirler ve görme kalitesini saptamada mikroperimetri günümüzde en faydalı yaklaşım olacaktır.

### Çıkar Çakışıması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### Kaynaklar

- Berson EL. Retinitis pigmentosa. The Friedenwald Lecture. Invest Ophthalmol Vis Sci 1993;34:1659-76.
- Pagon RA. Retinitis pigmentosa. Surv Ophthalmol 1988;33:137-77.
- Hajali M, Fishman GA, Anderson RJ. The prevalence of cystoid macular oedema in retinitis pigmentosa patients determined by optical coherence tomography. Br J Ophthalmol 2008;92:1065-8.
- Fishman GA, Gilbert LD, Fiscella RG, Kimura AE, Jampol LM. Acetazolamide for treatment of chronic macular edema in retinitis pigmentosa. Arch Ophthalmol 1989;107:1445-52.
- Ozdemir H, Karacorlu SA, Senturk F, Karacorlu M, Uysal O. Assessment of macular function by microperimetry in unilateral resolved central serous chorioretinopathy. Eye 2008;22:204-8.
- Cideciyan AV, Swider M, Aleman TS, Feuer WJ, Schwartz SB, Russell RC, et al. Macular function in macular degenerations: repeatability of microperimetry as a potential outcome measure for ABCA4-associated retinopathy trials. Invest Ophthalmol Vis Sci 2012;53:841-52.
- Greenstein VC, Duncker T, Holopigian K, Carr RE, Greenberg JP, Tsang SH, et al. Structural and functional changes associated with normal and abnormal fundus autofluorescence in patients with retinitis pigmentosa. Retina 2012;32:349-57.
- Okada K, Yamamoto S, Mizunoya S, Hoshino A, Arai M, Takatsuna Y. Correlation of retinal sensitivity measured with fundus-related microperimetry to visual acuity and retinal thickness in eyes with diabetic macular edema. Eye 2006;20:805-9.

### How to cite this article:

Özgönül C, Mumcuoğlu T, Gökçe G. Microperimetry Findings of a Patient with Macular Edema Secondary to Retinitis Pigmentosa. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 429-31.



## Idiopathic Eruptive Macular Pigmentation: Pediatric Case Report

### İdyopatik Erüptif Maküler Pigmentasyon: Pediatrik Olgu Sunumu

İdyopatik Erüptif Maküler Pigmentasyon / Idiopathic Eruptive Macular Pigmentation

Seval Doğruk Kaçar<sup>1</sup>, Pınar Özüguz<sup>1</sup>, Çiğdem Özdemir<sup>2</sup>, Merve Demir<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Deri ve Zührevi Hastalıkları A.D., <sup>2</sup>Tıbbi Patoloji A.D., Afyon Kocatepe Üniversitesi Tip Fakültesi, Afyonkarahisar, Türkiye

#### Özet

İdyopatik erüptif maküler pigmentasyon (İEMP) boyun, gövde ve proksimal ekstremitelerde asemptomatik hiperpigmente maküllerin izlendiği nadir görülen bir tablodur. Gövdede yerleşen hiperpigmente maküllerin ayırcı tanısında düşünülmesi gereken bu durum da spontan gerileme nedeniyle spesifik bir tedavi önerilmez. Burada klasik yerleşimi ve bulguları ile İEMP tanılı 4 yaşında bir kız çocuğu sunulmuştur.

#### Anahtar Kelimeler

Hiperpigmente Makül; İdyopatik Erüptif Maküler Pigmentasyon; Ashy Dermatoz

#### Abstract

Idiopathic eruptive macular pigmentation (IEMP) is a rare diagnosis in which asymptomatic, hyperpigmented macules are seen in neck, trunk and proximal extremities. There is no specific treatment of this condition which is in the differential diagnosis of hyperpigmented macules in trunk, as spontaneous regression is common. We herein present a 4 year old girl with classic location and findings of IEMP.

#### Keywords

Hyperpigmented Macule; Idiopathic Eruptive Macular Pigmentation; Ashy Dermatoses

DOI: 10.4328/JCAM.2471

Received: 08.04.2014 Accepted: 18.04.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 432-4

Corresponding Author: Seval Doğruk Kaçar, Afyon Kocatepe Üniversitesi Tip Fakültesi, Deri ve Zührevi Hastalıkları Anabilim Dalı, 03100, Afyonkarahisar, Turkey.  
GSM: +90533 3133885 E-Mail: sevaldogruk@hotmail.com

## Giriş

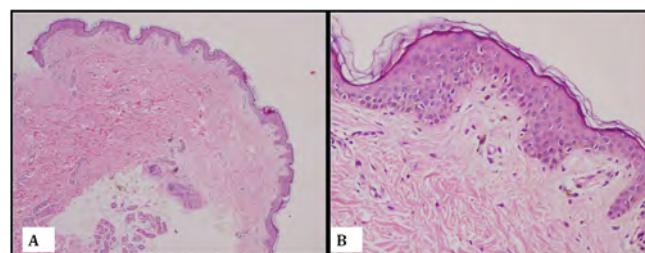
İlk olarak 1978 yılında Degos ve ark. tarafından tanımlanan idyopatik erüptif maküler pigmentasyon (İEMP) boyun, gövde ve proksimal ekstremitelerde asemptomatik hiperpigmente maküllerle seyreder [1]. Nadir görülen bu durum daha çok çocuk ve adolesanlarda görülür. Patogenez halen bilinmemektedir. Güneş görmeyen bölgelerde de olması sebebiyle etyoloji de güneş ışınları suçlanmamıştır. Melanozisi tetikleyen hormonal nedenler olabileceği öne sürülmüştür [2]. Ayrıca olgularda erken başlangıç yaşına rağmen aile öyküsü olmaması herediter nedenlerden de uzaklaştırılmıştır [3].

## Olgı Sunumu

Dört yaşında kız çocuğu 1 aydır omuzlarında başlayıp giderek kolları ve karnına yayılan soluk kahverengi lekeleri sebebiyle polikliniğimize başvurdu. Hastanın ailesinden lezyonların kaşintsız olduğu, lezyonların başlangıcında kizarıklık, kepekleme ve kabarıklık olmadığı öğrenildi. İlaç öyküsü yoktu. Dermatolojik muayenesinde gövde ön-arka yüzde boyun ve üst kollarda çok sayıda, 5-15mm boyutlarında, lentiküler paternde flu sınırlı, oval, kahverengi-gri renkli maküller izlendi (Resim 1A-C). Darier bulgusu negatifti. Lezyonlar Wood bakısı ile hafif belirginleşmekteydi. Yapılan histopatolojik inceleme sonucu basal tabakada pigment artışı, dermal melanofajlar ve inflamatuvar hücrelerin yokluğu sebebiyle İEMP tanısı konuldu (Resim 2A, B). Hasta tedavisiz takibe alındı.

## Tartışma

Gövdede yerleşen kahverengi maküllerin ayırcı tanısına tinea versikolor, ürtikerya pigmentoza, inkontinensiya pigmenti, er-



Resim 2. Epidermiste basal tabakada eşlik eden inflamasyon olmadan pigment artışı (x4, Hematoksilen ve eozin boyaması) (A), 2b (x10, Hematoksilen ve eozin boyaması) (B)

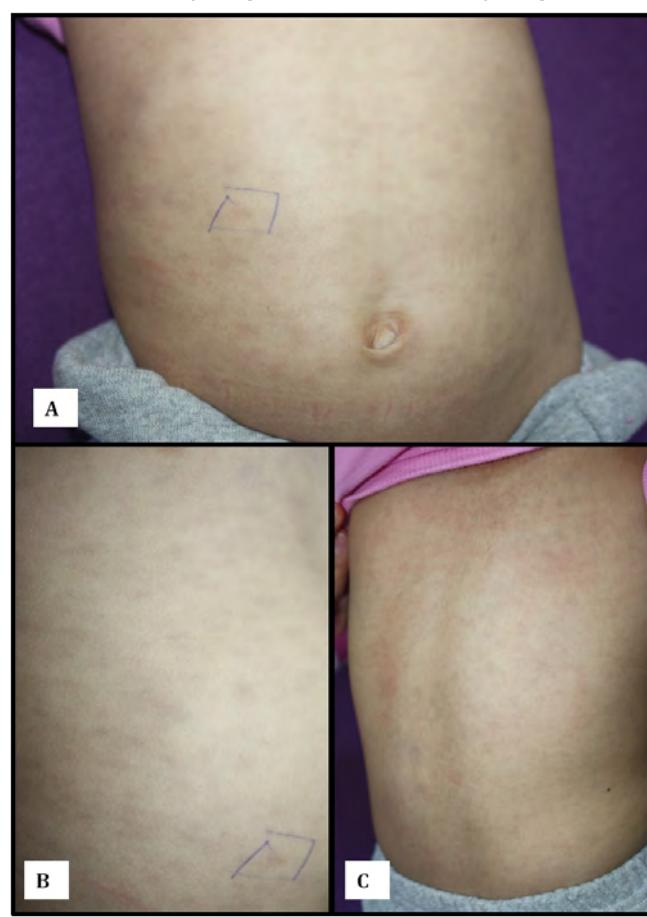
itema diskromikum perstans, jeneralize fiks ilaç erupsiyonu, liken planus pigmentozus, segmental lentijinöz, kafeola lekeleri, İEMP gibi pek çok hastalık girer [4]. Olgumuzda, skuam eşlik etmediği ve Wood inceleme negatif olduğu için tinea versicolor; Darier bulgusu negatif ve biyopside mast hücreleri izlenmediği için ürtikerya pigmentoza; lezyonların başlangıç yaşı, hikayede vezikülyasyon-verrüköz lezyonlar gibi tipik kronolojik gelişim öyküsü olmaması ve maküllerin konfigürasyonu sebebiyle inkontinensiya pigmenti; ilaç öyküsü olmaması ve hiç eritem tarif edilmemesi nedeniyle fiks ilaç erupsiyonu, segmental/dermatomal yayılım olmadığı için segmental lentijinöz; yamadan çok lentiküler patern olması ve yaygın yayılım sebebiyle kafeola lekeleri dışlanmıştır. Liken planus pigmentozus, liken planus'un nadir görülen bir varyantı olarak sıkılıkla güneş gören bölgelerde hiperpigmente maküller şeklinde görülür [5]. Eritema diskromikum perstans ise kül renginde, kenarları başlangıçta hafif kabarık ve eritemli olan, birleşme eğiliminde, maküllerin izlendiği idyopatik hipermelanozis tablosudur [6]. Her iki hastalığında histopatolojisinde basal-suprabazal keratinositlerde matür melanozomlar, basal lamina bütünlüğünün bozulması, vakuoler dejenerasyon, kolloid cisimcikler, hafif likenoid dermal bir infiltrasyon görülebilir. Olgumuzda lezyonların yaygın dağılımı, eritem izlenmemesi ve histopatolojik görünüm ile her iki tabloda düşünülmemiştir. Galdeona ve ark. yayınladıkları olgu serisinde İEMP tanısı için belli kriterlerin karşılanması gerektiğini belirtmiştir [7]. Bu kriterler, (1) çocukların gövde, boyun ve proksimal ekstremitelerde kahverengi birleşmeyen asemptomatik maküller olması, (2) öncesinde inflamatuvar lezyonlar görülmemesi, (3) ilaç öyküsü olmaması, (4) epidermiste basal hücre tabakasında hiperpigmentasyon ve likenoid infiltrat ya da basal tabaka hasarı olmadan belirgin dermal melanofajların görülmesi ve (5) mast hücre sayısının normal olması şeklinde bildirilmiştir.

İEMP'de histopatolojideki tipik bulgular hücresel infiltrat olmadan basal tabakada pigment artışı ve üst dermiste melanofajlar görülmesidir [1,7]. Bazi vakalarda eşlik eden papillomatosis bildirilmiştir [8].

Nadir görülmeye sebebiyle İEMP için kanıt dayalı, başarılı tedaviler bildirilmemiştir. Olgu sunumları ve olgu serilerinde aylar yollar içinde kendiliğinden gerileyebilen bu lezyonlarda spesifik bir tedavi önerilmez. Ancak ilginç olarak 21 yıl takip edilen olgu da bildirilmiştir [3]. Bu olguda topikal kortikosteroidler, tretinoin krem ve Kligman formülü denenmiş ve başarısız bulunmuştur. Biz de olgumuzda tedavisiz izlem yapmayı tercih etti.

## Sonuç

Özellikle çocuk ve adolesanlarda gövdede yerleşen hiperpigmente maküllerin ayırcı tanısında İEMP'de düşünülmelidir.



Resim 1. Gövde ön yüzlerde (A), yan yüzlerde (B) ve arkaya (C) yaygın lentiküler paternde flu sınırlı, oval kahverengi-gri renkli maküller

### **Çıkar Çaklıması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çaklıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### **Kaynaklar**

- 1.Camara VM, Lupi O, Pineiro-Maceira J. Idiopathic eruptive macular pigmentation. *Int J Dermatol* 2008;47(3):272-5.
- 2.Jang KA, Choi JH, Sung KS, Moon KC, Koh JK. Idiopathic eruptive macular pigmentation: report of 10 cases. *J Am Acad Dermatol* 2001;44(S2):351-3.
- 3.Mehta S, Aasi S, Cole R, Chu P, Weinberg JM. Idiopathic eruptive macular pigmentation: a case of 21 years' duration. *J Am Acad Dermatol* 2003;49(5):S280-2.
- 4.Aksungur VL, Alpsoy E, Baykal C, Uzun S, editors. *Dermatolojide algoritmik tanı*. 1. baskı, İstanbul; Argos Yayınevi; 2007. P. 364-71.
- 5.Rieder E, Kaplan J, Kamino H, Sanchez M, Pomeranz MK. Lichen planus pigmentosus. *Dermatol Online J* 2013;19(12):20713.
- 6.Torrelo A, Zaballos P, Colmenero I, Mediero IG, de Prada I, Zambrano A. Erythema dyschromicum perstans in children: a report of 14 cases. *J Eur Acad Dermatol Venereol* 2005;19(4):422-6.
- 7.Sanz de Galdeano C, Leaute-Labreze C, Bioulac-Sage P, Nikolic M, Taieb A. Idiopathic eruptive macular pigmentation: report of five patients. *Pediatr Dermatol* 1996;13(4):274-7.
- 8.Verma S, Thakur BK. Idiopathic eruptive macular pigmentation with papillomatosis. *Indian Dermatol Online J* 2011;2(2):101-3.

### **How to cite this article:**

Kaçar SD, Özüguz P, Özdemir Ç, Demir M. Idiopathic Eruptive Macular Pigmentation: Pediatric Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 432-4.



## Togetherness of Achalasia, Paraesophageal Diverticulum and Dextrocardia

### Akalazya, Paraözofageal Divertikül ve Dekstroktardi Birlikteliği

Akalazya / Achalasia

Hakan Demirci<sup>1</sup>, Cenk Kılıç<sup>2</sup>, Kadir Öztürk<sup>1</sup>, Murat Kantarcıoğlu<sup>1</sup>, Ahmet Uygun<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Gastroenterology, <sup>2</sup>Department of Anatomy, Gulhane Military Medical Academy, Faculty of Medicine, Ankara, Turkey

#### Özet

Akalazya, özefagusun motor fonksiyon bozukluğudur. Tedavisi oldukça yüz güldürür. Akalazya olgularında artan alt özofagus sfinkter basıncına bağlı olarak özofagusta divertiküler izlenebilmektedir. Biz akalazya, paraözofageal divertikül ve aynı zamanda dekstroktardi olan bir olguya sunuyoruz. 23 yaşında erkek hasta göğüs ağrısı, çarpıntı ve yutma zorluğu şikayetleriyle polikliniğimize başvurdu. Hastaya yapılan özofagus pasaj grafisinde özofagus distalinde kuş gagası görülmü izlendi. Özofagus distal kesiminde divertikül izlendi. Yapılan endoskopide kesici dişlerden itibaren 38. cm'de içinde gıda artıkları bulunan paraözofagial divertikül izlendi. Bu tetkikler sonucunda hastaya akalazya ve paraözofageal divertikül tanısı konuldu. Göğüs ağrısı ve çarpıntı şikayetleri için kardiyoloji konsültasyonu alındı. Yapılan transözofageal ekokardiyografide dekstroktardi izlendi. Hastaya balon dilatasyon tedavisi uygulandı. Dekstroktardi durumunda kalp yapısal olarak genellikle normaldir. Bu tip anomalinin sórvı üzerine kısaltıcı etkisi yoktur. Başka konjenital malformasyonlarla birlikte görülebilir. Dekstroktardiye akalazya ve paraözofageal divertikül eşlik edebilmektedir. Eğer konjenital anomaliler tespit edilirse, diğer olası yapısal hastalıklar akla getirilmelidir.

#### Anahtar Kelimeler

Akalazya; Paraözofageal Divertikül; Dekstroktardi

#### Abstract

Achalasia is a disorder of motor function of the esophagus. Its treatment is the quite gratifying. Depending on increasing lower esophageal sphincter pressure, esophageal diverticula can occur in patients with achalasia. We report achalasia, paraesophageal diverticulum and also offer a patient with dextrocardia. 23 year old male patient was admitted to our outpatient clinic with following complaints; chest pain, palpitations and difficulty swallowing. The bird's beak appearance was observed to in the distal esophagus in contrast barium graph. The diverticulum was viewed in the distal part of esophagus. Paraesophageal diverticulum situated in food scraps was viewed at 38 cm from the incisors on the endoscopy. It was diagnosed with achalasia and paraesophageal diverticulum to patient as a result of this examination. Cardiology consultation was requested for complaints of chest pain and palpitation. Dextrocardia was viewed in the transesophageal echocardiography. It was applied balloon dilation therapy to patient. The heart is usually structurally normal in the case of dextrocardia. This type of anomaly is not life-shortening effect on. They may be associated with other congenital malformations. Achalasia and paraesophageal diverticulum may be associated with dextrocardia. If congenital anomalies was detected, other possible structural diseases remind.

#### Keywords

Achalasia; Paraesophageal Diverticulum; Dextrocardia

DOI: 10.4328/JCAM.2452

Received: 09.04.2014 Accepted: 19.04.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 435-6

Corresponding Author: Cenk Kılıç, GATA Department of Anatomy, Faculty of Medicine, Gulhane Military Medical Academy, Ankara, Turkey.

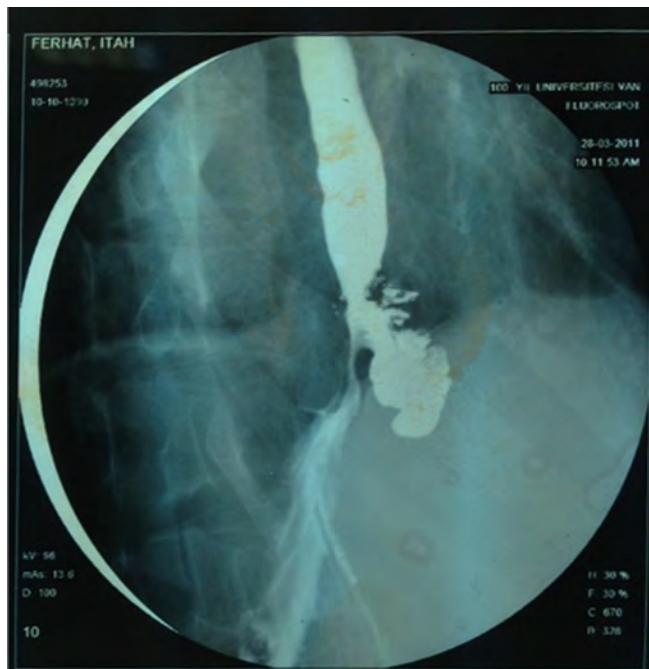
T: +90 3123043510-07 E-Mail: ckilicmd@yahoo.com

## Giriş

Akalazy, özefagusun en iyi bilinen ve tedavisi en yüz güldürücü olan motor fonksiyon bozukluğudur [1]. Achalasia kelime olarak gevşeme güçlüğü anlamına gelmektedir. Akalazyada artan alt özofagus sfinkter basıncına bağlı olarak özofagusta divertiküler izlenebilmektedir [2]. Burada akalazy, paraözofageal divertikül ve aynı zamanda dekstrokardi olan bir olguyu sunuyoruz.

## Olgu Sunumu

23 yaşında erkek hasta göğüs ağrısı, çarpıntı ve yutma zorluğu şikayetleriyle kliniğimize başvurdu. Alınan anamnezde hastanın katı gıdaları yutmakta zorlandığı ve sıvı gıdalar ile yutmayı kolaylaştırdığını ifade etmekteydi. Ayrıca zaman zaman sindirim memiş gıdaların ağızına gelmesinden şikayetçiyydi. Hastaya yapılan özofagus pasaj grafisinde özofagus distalinde kuş gagası görünümü, lümende kontrast stazi ve distal kesim komşuluğunda dolma fazlalığı (divertikül) izlendi (Şekil 1-2). Yapılan endoskopide kesici dislerden itibaren 38. cm'de içinde gıda artıkları



Resim 1.



Resim 2.

ları bulunan paraözofagial divertikül izlendi. 42. cm'de Z hattından zorlanarak mideye geçildi. Bu tetkikler sonucunda hastaya akalazya ve paraözofageal divertikül tanısı konuldu. Göğüs ağrısı ve çarpıntı şikayetleri için kardiyoloji konsültasyonu yapıldı. Hastanın transözofageal ekokardiyografi incelemesinde (şekil 3) dekstrokardi, persistan sol vena cava superior ve triküspit lateral anulusta ekojenite artışı izlendi. Kardiyoloji tarafından tıkaibe alınan hastaya akalazya açısından balon dilatasyon tedavisi uygulandı. Şikayetlerinde rahatlama olan hasta kontrole gelmek üzere taburcu edildi.



Resim 3.

## Tartışma

Dekstrokardi durumunda kalp yapısal olarak genellikle normaldir. Bu tip anomalinin yaşam süresi üzerine kısaltıcı etkisi yoktur. Başka konjenital malformasyonlarla birlikte görülebilirler [3]. Bizim olgumuzda sunulduğu gibi dekstrokardiye akalazya ve paraözofageal divertikül eşlik edebilmektedir. Konjenital malformasyonların birliktelliğini gösteren geniş hasta serileri bulunmaktadır. Daha çok olgu sunumları şeklinde literatürde yer almaktadır. Bilgilerimize göre akalazya, dekstrokardi ve paraözofageal divertikül birlikteliği daha önce literatürde yer almaktadır. Görüşümüze göre bu birliktelik bir sendromdan öte senkron bir hastalığa işaret etmektedir. Akalazya nedeniyle alt özofageal basıncındaki artış paraözofageal divertiküle neden olmuş olabilir. Ayrıca kalbin sağ rotasyonu da divertikül oluşan tarafta destek dokusunun azalmasına yol açarak bu süreci hızlandırdığı olasılığı düşünülmektedir. Konjenital anomalilerin saptandığı durumlarda diğer olası yapısal hastalıklar açısından dikkatli olunmalıdır.

## Çıkar Çakışması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

## Kaynaklar

1. O'Neill OM, Johnston BT, Coleman HG. Achalasia: a review of clinical diagnosis, epidemiology, treatment and outcomes. *World J Gastroenterol* 2013; 19(35):5806-12.
2. Cantù P, Bozzani A, Penagini R. Cantù P, Bozzani A, Penagini R. Spontaneous perforation of an oesophageal diverticulum in achalasia. *Dig Liver Dis* 2003; 35(10):735-7.
3. Perloff IK. The cardiac malpositions. *Am J Cardiol* 2011; 108(9):1352-61.

### How to cite this article:

How to cite this article:  
Demirci H, Kılıç C, Öztürk K, Kantarcioğlu M, Uygun A. Togetherness of Achalasia, Paraesophageal Diverticulum and Dextrocardia. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 435-6.



## Estramustine Usage After Docetaxel in Castration Resistance in Prostate Cancer

### Kastrasyon Rezistans Metastatik Prostat Kanserinde Doisetaksel Sonrası Estramustin Kullanımı

Prostat Kanserinde Estramustin / Estramustine in Prostate Cancer

Mustafa Yıldırım<sup>1</sup>, Çetin Kaya<sup>2</sup>, Sevil Göktaş<sup>2</sup>, Utku Dönem Dilli<sup>2</sup>, Mustafa Yıldız<sup>2</sup>

<sup>1</sup>T.C. Sağlık Bakanlığı Türkiye Kamu Hastaneleri Kurumu Batman İli Kamu Hastaneler Birliği Batman Bölge Devlet Hastanesi, Tibbi Onkoloji, Batman,  
<sup>2</sup>T.C. Sağlık Bakanlığı Türkiye Kamu Hastaneleri Kurumu Antalya İli Kamu Hastaneler Birliği Antalya Eğitim ve Araştırma Hastanesi, Tibbi Onkoloji Kliniği, Antalya, Türkiye

Bu çalışma 20.Uluslararası Kanser Kongresi, Antalya. 2013'de poster olarak sunulmuştur.

#### Özet

Prostat kanserinin moleküler mekanizmaların anlaşılmalarıyla son zamanlarda kastrastan rezistans prostat kanserinde yeni ajanlar tedaviye eklenmiştir. Bu tedavilerle bağlı olarak nötropeni, yorgunluk, gastrointestinal semptomlar ve nöropati gibi komplikasyonlar gelişebilmektedir. Estramustin uzun süreli prostat kanserinde oral olarak kullanılan ve yan etkileri az olan bir ilaçtır. Bu yazımızda doisetaksel sonrası progrese olan bir hastamızda estramustin kullanımı, estramustinin uzun süreli progresyonuz sağkalım katkısı ve prostat kanserinin bu evresinde bir tedavi alternatif olabileceği vurgulamak amacıyla tartışılmıştır.

#### Anahtar Kelimeler

Prostat Kanseri; Estramustin; Prognozis

#### Abstract

Due to knowledge about molecular mechanisms of prostate cancer new agents have joined the treatment protocols of castration-resistant prostate cancer in recent years. Complications such as neutropenia, fatigue, gastrointestinal symptoms and neuropathy may occur depending on these therapy models. Estramustin is known as an orally used drug with few adverse effects in treatment of prostate cancer for a long time. In this article we aim to present the use of estramustin in a patient with progression after docetaxel and discuss the effect of long-term use of estramustin in survival without progression and to emphasize that it can be an alternative treatment modality in this stage of prostate cancer.

#### Keywords

Prostate Cancer; Estramustine; Prognosis

DOI: 10.4328/JCAM.2474

Received: 08.04.2014 Accepted: 19.04.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 437-9

Corresponding Author: Mustafa Yıldırım, T.C. Sağlık Bakanlığı Türkiye Kamu Hastaneleri Kurumu Batman İli Kamu Hastaneler Birliği Batman Bölge Devlet Hastanesi, Tibbi Onkoloji Gültepe Mahallesi Eflatun Caddesi, 72070, Batman, Türkiye. GSM: +905333948252 F.: +90 4882213064 E-Mail: mustafayildirim@yahoo.com

## Giriş

Prostat kanseri erkeklerde en sık görülen ve kanser nedenli ölümlerin ikinci sıklıkta nedenidir [1]. Erken evre prostat kanseri lokal tedaviler sonrası lokal veya uzak nüks gelişebildiği gibi hastaların % 10-20'si metastatik hastalık ile tanı alırlar. Metastatik hastalarda hormonal tedavi ile uzun süreli hastalık kontrollü sağlanması rağmen 18-24 ay içinde hastaların çoğunuğu progrese olur [2].

Prostat kanserinin moleküler mekanizmaların anlaşılmalarıyla son zamanlarda kastraston rezistans prostat kanserinde (KRPK) yeni ajanlar tedaviye eklenmiştir. Bu ajanlar iki sitotoksik ajan Doisetaksel ve Kabazitaksel, iki hormonal ajan Abiraterone ve Enzulatamide, alfa-emitting radyofarmasötik Alpharadin ve imün tedavi Sipuleucel-T yer almaktadır. Bu tedavilere bağlı olarak nötropeni, yorgunluk, gastrointestinal semptomlar ve nöropati gibi komplikasyonlar gelişebilmektedir [3]. Özellikle yaşlı hastalarda bu tedaviler tolere edilememektedir.

Estramustin estradiol ve nornitrojen mustardin konjuge formudur. Mikrotübül ilişkili proteinlere bağlanarak sitotoksik etkisini gösterir. Uzun süredir prostat kanserinde kullanılan bu ilaç oral olarak kullanılabilmektedir [4].

Bu yazımızda KRPK'lı Doisetaksel sonrası progrese olan bir hastamızda Estramustin kullanımı, estramustinin uzun süreli progresyonuz sağkalım katkısı ve prostat kanserinin bu evresinde bir tedavi alternatif olabileceği vurgulamak amacıyla tartışılmıştır.

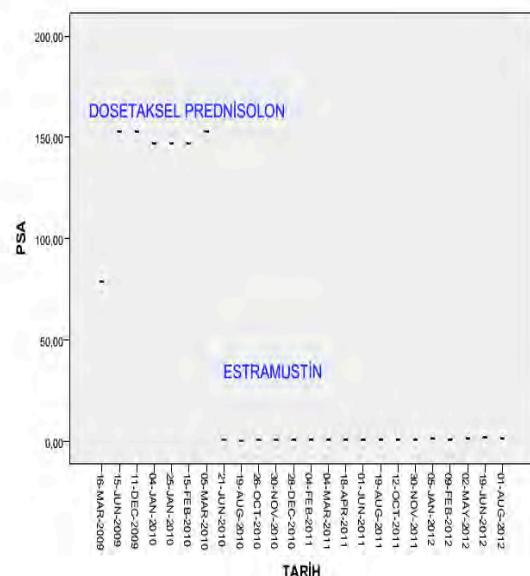
## Olgı Sunumu

Yayın kemik ağrısı nedeniyle kliniğimize başvuran 75 yaşındaki erkek hasta 15 yıl önce prostat kanseri nedeniyle opere edilmiş. Kliniğimize başvurusundan iki yıl önce yaygın kemik ağrısı başlamış başvurduğu sağlık kurumunda multipl kemik metastazları ile birlikte PSA artışı saptanarak tespit edilen hastaya leuprolide asetat 11.25 mg/ 3 ayda bir ve bicalutamid 50 mg/gün başlanmıştır. Hastanın kliniğimize başvurusundaki laboratuvar incelemesinde BK:7.75 103/mm<sup>3</sup>, RBC: 4.91 106/mm<sup>3</sup>, HGB: 12.7 g/dL, HCT: % 38.2, MCV:77.8 um<sup>3</sup>, PLT: 268 103/mm<sup>3</sup>, BUN:15 mg/dL, Kreatinin: 1.0 mg/dL, LDH:316 U/L, AST:45 U/L, ALT:20 U/L PSA: >153.0 ng/dL olarak tespit edildi. Kliniğimizde yapılan sintigrafik incelemede yaygın kemik metastazları tespit edildi ve fraktür riski nedeniyle her iki femur proksimaline 3000 cGy palyatif radyoterapi uygulandı. Hastaya doisetaksel 75 mg/m<sup>2</sup> 21 günde bir ve prednisolon 5mg/günde 2 defa sürekli başlandı. Bu kemoterapi protokolü 4 siklus uygulandı. PSA değerlerinde gerileme olmadı. Hastaya estramustin 280 mg/günde 3 defa başlandı. Takibinde PSA 1.8 ng/dL'ye kadar geriledi (Şekil 1). Estramustini üç yıl kullanan hastada grad 3-4 yan etki gözlenmedi ve takibi halen devam etmektedir.

## Tartışma

KRPK prognozu kötü bir hastalıktır ve medyan yaşam süresi 10-12 aydır. KRPK'inde sitotoksik kemoterapi sonuçları iyi olmamla birlikte doisetaksel kullanımı ile daha yüksek yanıt oranı ve daha uzun medyan yaşama süresi elde edilmiştir [5].

KRPK hastalarda 2004 yılında dosetakselin etkinliği TAX-327 çalışması ile gösterilmiştir. Bu çalışmada dosetaksel mitoksantrone karşılaştırılmış ve 18,9 aya karşılık 16,5 ay ile dosetaksel tedavi kolunda medyan yaşam süresi daha fazla bulun-



Şekil 1. Tedavi altında hastanın PSA değerlerinin değişimi

mustur [5]. Pteryak ve ark. [6] dosetaksel estramustin kombinasyonuna karşı mitoksantrone prednizon kombinasyonu 17,5 aya karşılık 15,6 ay ile medyan yaşam süresi açısından üstün olduğunu göstermişlerdir. Dagher ve ark. [7] dosetaksel prednizon kombinasyonu ile mitoksantron prednizon kombinasyonunu karşılaştırmışlardır. Medyan yaşam süresini dosetaksel lehine 18,9 aya karşılık 16,5 ay daha uzun bulmuşlardır [7].

Doisetakselin üstün görünmesine rağmen yararı sınırlıdır ve mutlak yaşam süresi avantajı 2,4 aydır. TAX-327 çalışmasına alınan hastalardan progrese olanlar ile diğer kola geçilerek tedavi devam edenler değerlendirildiğinde yaşam süresi bakımından farklılık tespit edilmemiştir. TAX-327 çalışmasında grad 3-4 nötropeni % 32 ve febril nötropeni % 3 oranında tespit edilmiştir. Sınırlı yararına rağmen KRPK hastalarında dosetaksel standart tedavi olma eğilimindedir [5].

KRPK de günümüzde artan oranda yeni tedavi ajanları rutin kullanıma girmektedir. Doisetaksel bazlı kemoterapi sonrası progrese olan hastalarda hem Abirateron hem de kabazitakselin etkinliği gösterilmiştir. Kabazitaksele bağlı hastaların %82'inde grade 3 nötropeni gözlenirken; abiraterona bağlı sıvı retansiyonu ve ödem gözlenmiştir [8]. Mevcut toksisiteler bu ilaçların ileri yaşındaki hastalarda kullanımı güçlendirilmektedir. Aynı zamanda bu ilaçlar yan etkilerinin yanında yüksek tedavi maliyetlerini de getirmektedir. Estramustin KRPK'de monoterapi olarak kullanımı bir çok prospektif ve retrospektif çalışmada araştırılmış ve etkinliği gösterilmiştir [4].

Matsomoto ve ark. [4] 102 hastalık retrospektif araştırmalarında hastaların %68.6'sında 4 haftalık indüksiyon tedavisi sonrası PSA değerlerinde düşme olduğu gösterilmiştir. Hastaların %29.4'ünde 6 aydan daha uzun süreli yanıt elde edilmiştir. Estramustin kullanımı ile görülen yan etkiler bulantı, jinekomasti ve karaciğer disfonksiyonudur. Bu çalışmada yan etkiler nedeni ile tedaviyi bırakınanların oranı %10.8'dir. Bu çalışmanın sonucunda uzun süreli hormonel tedavi alan hastalarda Estramustun'un bir tedavi seçeneği olabileceği öne sürülmüştür.

Hastamız hormonal tedavi ile iki yıl remisyonda kalmıştır. Hormonal tedavi ile medyan yanıt süresi 18 aydır. Hastamızda gö-

receli olarak hormanal tedaviye uzun süreli yanıt devam etti. Estramustin'e iyi yanıt vermesi bununla ilişkili olabilir. Hormon rezistans metastatik prostat kanserli hastamızda do-setaksel sonrası Estramustin kullanımı ile uzun süreli progres-yonsuz takip elde edildi. Estramustin KRPK hastalarında 3. ba-samakta güvenilir ve düşük maliyetli bir seçenek olduğunu dü-şünüyoruz.

#### **Çıkar Çaklıması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çaklıması ve finansman destek alındığı be-yan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Soydan H, Malkoç E, Dursun F, Okçelik S, Ateş F, Adayener C, et al. Prostat Kanserinde Radikal Prostatektomi ve Aktif İzlem; Cinsel İşlevler ve Depresyon Durumun Değerlendirilmesi. *J Clin Anal Med* 2013;4(3): 189-92.
2. Labrie F. Hormonal therapy of prostate cancer. *Prog Brain Res* 2010;182(10):321-41.
3. Zukotynski K, Haider MA. Imaging in prostate carcinoma. *Hematol Oncol Clin North Am* 2013;27(6):1163-87.
4. Matsumoto K, Tanaka N, Hayakawa N, Ezaki T, Suzuki K, Maeda T, et al. Efficacy of estramustine phosphate sodium hydrate (EMP) monotherapy in castration-resistant prostate cancer patients: report of 102 cases and review of literature. *Med Oncol* 2013;30(4):717.
5. Tannock IF, de Wit R, Berry WR, Horti J, Pluzanska A, Chi KN, et al. Docetaxel plus prednisone or mitoxantrone plus prednisone for advanced prostate cancer. *N Engl J Med* 2004;351(15):1502-12.
6. Petrylak DP, Tangen CM, Hussain MH, Lara PN, Jr, Jones JA, Taplin ME, et al. Do-cetaxel and estramustine compared with mitoxantrone and prednisone for advan-ced refractory prostate cancer. *N Engl J Med* 2004;351(15):1513-20.
7. Dagher R, Li N, Abraham S, Rahman A, Sridhara R, Pazdur R. Approval summary: docetaxel in combination with prednisone for the treatment of androgen-independent hormone refractory prostate cancer. *Clin Cancer Res* 2004;10(24):8147-51.
8. Fizazi K, Scher HI, Molina A, Logothetis CJ, Chi KN, Jones RJ, et al. Abiraterone acetate for treatment of metastatic castration-resistant prostate cancer: final overall survival analysis of the COU-AA-301 randomised, double-blind, placebo-controlled phase 3 study. *Lancet Oncol* 2012;13(10):983-92.

#### **How to cite this article:**

Yıldırım M, Kaya Ç, Göktas S, Dilli UD, Yıldız M. Estramustine Usage After Docetaksel in Castration Resistance in Prostate Cancer. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 437-9.



## Case of a Ascending-to-Descending Aortic Bypass for Complex Coarctation of the Aorta

### Asendan - Desendan Aortik Bypass Yapılan Komplike Aort Koarktasyonu Olgusu

Asendan - Desendan Aortik Bypass / Ascending-to-Descending Aortic Bypass

Bektaş Battaloğlu<sup>1</sup>, Olcay M. Dişli<sup>1</sup>, Barış Akça<sup>1</sup>, Cemşit Karakurt<sup>2</sup>, Nevzat Erdil<sup>1</sup>

<sup>1</sup>Department of Cardiovascular Surgery, <sup>2</sup>Department of Pediatric Cardiology, Turgut Özal Medical Center, İnönü University Faculty of Medicine, Malatya, Turkey

#### Özet

Aort koarktasyonu kompleks formunun tedavisi için çeşitli yaklaşım ve cerrahi teknikler önerilmektedir. Cerrahi düzeltme gerektiren ek kardiyovasküler bozukluk olduğunda lezyonların aynı kesiden aynı anda düzeltmesi tercih edilir. Bu yazida, komplike aort koarktasyonlu olguda median sternotomi ile gerçekleştirilen asendan- desendan aorta bypass grefti tekniği ve eşzamanlı ek kardiovasküler bozukluk onarımını anlattık.

#### Anahtar Kelimeler

Aort Koarktasyonu; Anastomoz; Cerrahi; Hipertansiyon

#### Abstract

A variety of approaches and surgical techniques have been proposed for the management of complex form of aortic coarctation. When there is an additional cardiovascular disorder that requires surgical correction it is preferable to correct both lesions through the same incision simultaneously. In this paper, we describe the technique of ascending-to-descending aorta bypass grafting performed through the median sternotomy and simultaneous additional cardiovascular disorders repair in a case who had complex aortic Coarctation.

#### Keywords

Aortic Coarctation; Anastomosis; Surgical; Hypertension

DOI: 10.4328/JCAM.2456

Received: 07.04.2014 Accepted: 22.04.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 440-2

Corresponding Author: Barış Akça, Department of Cardiovascular Surgery, Kilis State Hospital, Kilis, Turkey.

T: +90 3488135201/1327 F: +90 3488133413 E-Mail: dr.baris.akca@yandex.com.tr

## Introduction

Complex or recurrent form of aortic coarctation with or without additional cardiovascular disorders represents a surgical challenge. In these patients, anatomic repair of the aortic coarctation is associated with high risk of postoperative morbidity and mortality [1]. To decrease high risk, several surgical techniques have been described for treatment of aortic coarctation instead of anatomic repair. Some of them include several extra-anatomic bypass grafting methods [2-4].

In this study, we report a case of ascending-to-descending aorta bypass grafting in a patients with aortic coarctation. Extra-anatomic bypass indication was associated mitral valve stenosis and residual hypoplastic aortic arch.

## Case Report

The case was a 19 years old female who has experienced a previous surgery for aortic coarctation. When she was 12 years old, an aortic coarctation (nearly interrupted aortic arch) and additional mild mitral valve stenosis have been demonstrated. Surgical repair of coarctation has been performed by implanting a Dacron tube graft between aorto-left subclavian artery junction and thoracic aorta via left posterolateral thoracotomy. Four years after the first operation, the patient was hospitalized for hypertension complain. Diagnostic procedures showed that previous aortic bypass graft was patent. It was also observed that there were severe mitral valve stenosis and residual aortic arch hypoplasia (figure-1). After diagnosis, we decided to correct disorders through the same incision.

Following sternotomy, arterial cannulation accomplished by using the ascending aorta and then venous cannulation was performed. After cannulation cardiopulmonary bypass (CPB) was initiated and cardiac arrest was established. The patient was cooled to a rectal temperature of 33°C. In order to approach to the descending aorta, the heart was retracted superiorly in cephalic direction. The retrocardiac descending thoracic aorta was exposed and isolated through the posterior pericardium and a side-biting clamp was used for the distal anastomosis. The non-bifurcated side of a 20/10-mm Hemashield Y graft (Mead-ox Medical, Inc., since acquired by Boston Scientific Corporation; Natick, Mass) was implanted to descending aorta with end-to-side anastomosis. The graft was routed around the left margin of the heart and the bifurcated side of Y graft was implanted to ascending aorta (figure-2). Then left atriotomy was made and mitral valve fenestration and valvotomy were performed.

Postoperative period was quite satisfactory and any measured blood pressure difference between upper and lower extremities wasn't observed. However, after asymptomatic 3 years period, symptoms were recurred. Echocardiography showed severe mitral insufficiency and aortography revealed that one limb of the Y graft was occluded and the other limb has severe stenosis at the inflow orifice. She underwent a reoperation and Y graft was replaced with a 24mm Hemashield tube graft and additionally mitral valve replacement (St. Jude Medical, Inc.; St. Paul, Minn) was performed. It was observed that occlusion of graft was due to severe calcification at the inflow orifice. Postoperative course was uneventful and measured blood pressure of upper and lower extremities was equal postoperatively. Her life qual-

ity was wonderful at her long term follow up (3 years after the last operation).



Figure 1. Aortography shows aortic coarctation, residual aortic arch hypoplasia and patent aortic bypass graft.

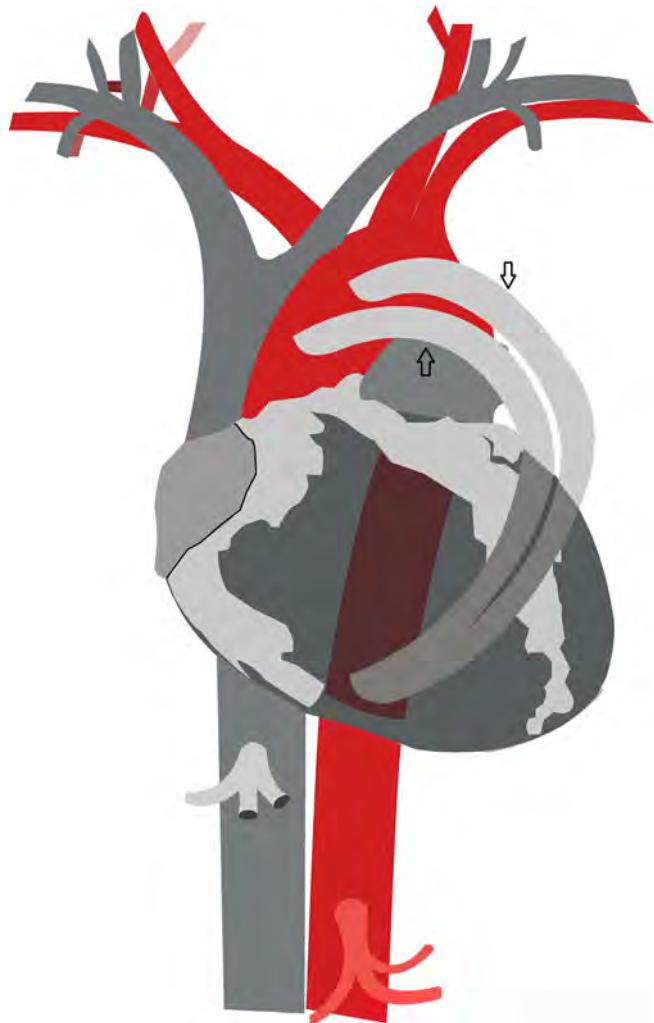


Figure 2. Hemashield Y graft was implanted to descending aorta with end-to-side anastomosis. The graft was routed around the left margin of the heart and the bifurcated side was implanted to ascending aorta (Diagrammatic image).

## Discussion

Coarctation or recoarctation of the aorta with additional cardiovascular disorders that require repair present a major challenge for the surgeon. In such patients, staged surgical treatment may be associated with increased complications. In 1980, Vijayanagar et al.[2], described the technique of extra-anatomic ascending-to-descending aortic bypass with the posterior pericardial approach to access the descending aorta and simultaneous aortic valve replacement. They performed this procedure through a single median sternotomy and used a tube graft for extra-anatomic bypass which placed around the left margin of the heart. Later Powell et al.[5], reported a modification of this procedure, in which the graft has been placed around the right margin of the heart. Since the initial description, several reports demonstrated successful outcome of ascending-to-descending aortic bypass [1, 4, 6].

In this case, at previous extra-anatomic aortic bypass operation we used Y graft for ascending-to-descending aortic bypass because of small ascending aorta. Although there were no complaint for the tube graft in the other reports, we also guessed that a tube graft would be a block intra-pericardial mass and consequently the heart might be distributed by this block mass in such a small sized patient. So we decided to perform this procedure with Y graft. The length of non-bifurcated side of a Y graft was held shortly as possible as. Thus, the big part of the graft that routed around the heart was consisted of bifurcated side which wasn't a block mass. Intraoperative experience led us to taught that, Y graft could be a favorable choice for patients with small pericardial cavity and ascending aorta.

However, there was a drawback of Y graft because of the orifice area of bifurcated side is lower than non-bifurcated side. This difference might not allow complete relief of aortic coarctation caused blood pressure gradient. In this case there was already some patency of coarcted segments. Therefore, we thought that blood flow through the graft plus the native aorta would be enough. Actually, we didn't observed any measured blood pressure difference between upper and lower extremities postoperatively. Unfortunately, we experienced calcified occlusion of Y at follow up which might be result of high turnover of calcium metabolism in this young patient. However, we taught that this was a drawback related to the graft type, not else ascending-to-descending aortic bypass technique.

In conclusion, ascending-to-descending aortic bypass for patients with complex coarctation and concomitant cardiovascular disorders appears to be a surgically feasible method. However, possibility of calcified stenosis of graft orifice especially in small sized grafts should be kept in mind.

### Çıkar Çakışıması ve Finansman Beyanı

Bu çalışmada çıkar çakışıması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

### References

- Connolly HM, Schaff HV, Izhar U, Dearani JA, Warnes CA, Orszulak TA. Posterior Pericardial Ascending- to- Descending Aortic Bypass; An Alternative Surgical Approach for Complex Coarctation of the Aorta. *Circulation* 2001;104:I-133-7.
- Vijayanagar R, Natarajan P, Eckstein PF, Bognolo DA, Toole JC. Aortic valvular insufficiency and postductal aortic coarctation in the adult: combined surgical management through median sternotomy: a new surgical approach. *J Thorac Cardiovasc Surg*. 1980;79(2):266-8.
- Arakelyan V, Spiridonov A, Bockeria L. Ascending-to-descending aortic bypass via right thoracotomy for complex (re-) coarctation and hypoplastic aortic arc. *Eur J Cardiothorac Surg* 2005;27(5):815-20.
- Heinemann M, Ziemer G, Wahlers T, Köhler A, Borst HG. Extraanatomic bypass grafts: indications, techniques, and results. *Eur J Cardiothorac Surg* 1997;11(1):169-75.
- Powell W, Adams P, Cooley D. Repair of coarctation of the aorta with intracardiac repair. *Tex Heart Inst J*. 1983;10(4):409-13.
- Aoyagi S, Fukunaga S, Tayama E, Yoshida T. Extraanatomic aortic bypass for repair of aortic coarctation. *J Card Surg*. 2007;22(5):436-9.

### How to cite this article:

Battaloglu B, Dişli OM, Akça B, Karakurt C, Erdil N. Case of a Ascending-to-Descending Aortic Bypass for Complex Coarctation of the Aorta. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 440-2.



## Co-occurrence of Acute Coronary Syndrome and Stroke: Trousseau's Syndrome

### Akut Koroner Sendrom ve Strok Birlikteliği; Trousseau Sendromu

Trousseau Sendromu / Trousseau's Syndrome

Mehmet Yigit<sup>1</sup>, Kenan Ahmet Turkdogan<sup>1</sup>, Ozgur Sogut<sup>1</sup>, Eda Yigit<sup>1</sup>, Asli Yaman<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Department of Emergency Medicine, <sup>2</sup>Department of Neurology, Bezmiâlem Vakif University, Istanbul, Turkey

#### Özet

1865 yılında; Trousseau beklenmedik gelişen veya mobil tromboflebitlerin viseral malignite belirtisi olabileceğine işaret etti. Trousseau sendromu, müsin pozitif karsinomlu kanser hastalarında komorbitide oluşturmaktadır ve mikroangiopati, verrüköz endokardit ve arteriel emboli komponentlerini içeren kronik dissemine intravasküler koagülopati tablosunu içerir. 86 yaşında 6 yıldır prostat kanseri tanılı erkek hasta sağ elini kullanamama şikayeti ile acil servisimize başvurdu. Hastanın MR difüzyonunda difüzyon kısıtlılığı saptandı ve serebrovasküler hastalık tanısı konuldu. Hastanın EKG'sinde inferior and anteroseptal R kaybı, inferior QS paterni mevcut. Serum örneğinde yüksek seviyede troponin mevcuttu. Hastanın tedavisi 300mg asetilsalisilik asid ile başlandı ve medikal tedaviler eklenди. Malignite tanılı hastalarda Trousseau sendromu akılda tutulmalı ve hekimler malignite kaynaklı sekonder trombotik olayların gerçekleşebileceğini göz önünde bulundurmalıdır.

#### Anahtar Kelimeler

Acil Servis; Malignite; Trousseau Sendromu

#### Abstract

In 1865, Trousseau remarked that there was a possibility for an unforeseen or mobile thrombophlebitis to be a sign of an occult visceral malignancy. Trousseau's syndrome is often a comorbid of mucin-positive carcinomas in patients who have cancer and it includes chronic disseminated intravascular coagulopathy associated with microangiopathy, verrucous endocarditis and arterial emboli. 86 year old male patient who had a prostate cancer for 6 years came to our emergency department with a complaint of not being able to use his right hand. We founded that there was diffusion limitation in MR diffusion and cerebrovascular disease was diagnosed by MR diffusion. There was R segment losses in the inferior and anteroseptal leads of patients' ECG, had a QS pattern in the inferior leads. Serum samples had high levels of troponin. His treatment was started with 300 mg of acetylsalicylic acid and medical treatments were added. For patients who have had malignancy diagnosis, Trousseau's syndrome should be kept in mind and doctors should be alert for thrombotic events that may develop secondarily.

#### Keywords

Emergency Service; Malignancy; Trousseau's Syndrome

DOI: 10.4328/JCAM.2432

Received: 27.03.2014 Accepted: 23.04.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 443-5

Corresponding Author: Kenan Ahmet Turkdogan, Bezmiâlem Vakif University, Department of Emergency Istanbul, Turkey.

GSM: +905546807050 E-Mail: drturkdogan@gmail.com

## Introduction

As a result of his clinical observations, Trousseau reported that some of the patients presented with unexpected, unusual or mobile thromboses later showed a visceral malignancy. In the process of any malignancy can not be explained by routine tests ischemic stroke, despite effective treatment for recurrent arterial and venous thromboembolic events is called Trousseau's syndrome (TS) [1].

4 etiologic factors have been defined for the development of cerebrovascular disease in patients who have cancer:

- 1) Direct tumor effects (embolism resulting from tumor and tumors that excrete mucin),
- 2) Coagulation defects,
- 3) Infections and therapeutics (tamoxifen, cisplatin)
- 4) Complications of diagnostic procedures (subendothelial tissue factor oscillation with trauma) [2].

A physician should be alert for the development of thromboses with no known reason that could be prevented with anti-coagulation therapy with heparin but not with warfarin sodium and concentrate diagnostic efforts on exposing an underlying malignant lesion [1]. The purpose of this study was to review Trousseau syndrome through a patient whose history included a diagnosis of malignancy and who came to our emergency room with an acute ischemic manifestation. In addition, we wanted to emphasize that patients who are thought to have Trousseau syndrome are inclined to a secondary thrombotic event through our case that had developed ACS when diagnosed with CVD.

## Case Report

86 year old male patient came to our emergency room with a complaint of weakness in the right arm and difficulty of speaking. His general condition was good and his consciousness was clear, cooperative and oriented. There were in his history DM and CVD. His physical examination revealed 2/5 muscle power in the right arm, 5/5 muscle power in the left arm and difficulty of speech. The patient's complaints had started 8 hours ago. His systemic examination showed that his fever was 37.2, his pulse was 98 and his blood pressure was 120 /80. His 12 derivation ECG showed normal sinus rhythm and ST depression at D2 D3 aVF. His laboratory results were as follows: wbc: 6.43 , hb: 12,7 , platelet 160 , BUN: 28.60 , creatinin: 1 and INR: 1,31. His computerized tomography did not show any specifications. His MR diffusion showed linear diffusion limitations on the left postcentral gyrus area and lacunar diffusion limitations on the right+left posterior cerebral artery area with lacuna large scale diffusion limitation on the left cerebral area. The patient's ECG showed ischemia, thus his cardiac markers were checked. The results were as follows: CK:148, CKMB:30, Troponin I: 11,537. Other laboratory and genetic data were normal. Neurology department recommended 300 mg acetylsalicylic acid and the cardiology department recommended clopidogrel hydrogen sulfate, ramipril, tirmetadizine hydrochloride, isosorbide mononitrate, metoprolol and enoxaparin sodium treatment. His ECO showed that his EF was 55%, his septum basal was hypokinetic, his valves were degenerative and right cavities were dilated. DM, HT, SVH ve terminal dönem prostat ca si olan hastaya anjio yapılmasına hasta ve hasta yakınlarından onam alınamadı. The patient who was hospitalized in the neurology service was

discharged on the ninth day.

## Discussion

Trousseau was the first person to suggest an association between venous thrombosis and malignancy in 1865. Hemostatic abnormalities vary from abnormal coagulation tests in the absence of clinical manifestations to massive, fatal thromboembolism [3]. Before the diagnosis of malignancy, thrombotic episodes may be present by months or years and can manifest in Trousseau's syndrome through migratory superficial thrombophlebitis [4]. Patients who have cancer are in a hypercoagulable state.

A patient who has Trousseau's syndrome generally has an occult tumor that is not always noticeable at the time of presentation. In case of discovery of a tumor, it is usually an adenocarcinoma. In a review of patients with Trousseau's syndrome, the following associated tumors were observed [5]: pancreas 24%, Lung 20%, prostate 13%, stomach 12%, acute leukemia 9%, colon 5%. The treatment is challenging; heparin is helpful in relieving some of the manifestations, while warfarin seems to have no effect [6].

Clinical thromboembolism is found in about 11% of patients with cancer [5] and it is considered to be the second leading cause of death in patients who have overt malignant disease [7]. For certain types of tumors, autopsy series have reported

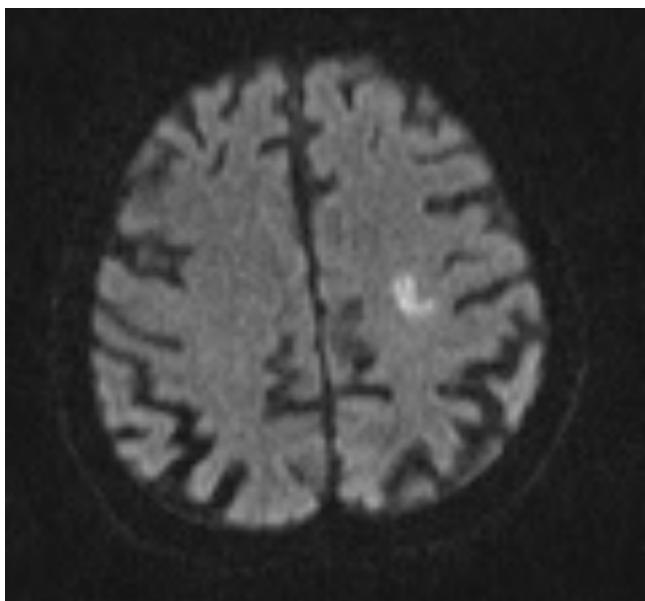


Figure 1. The patient's MR diffusion image

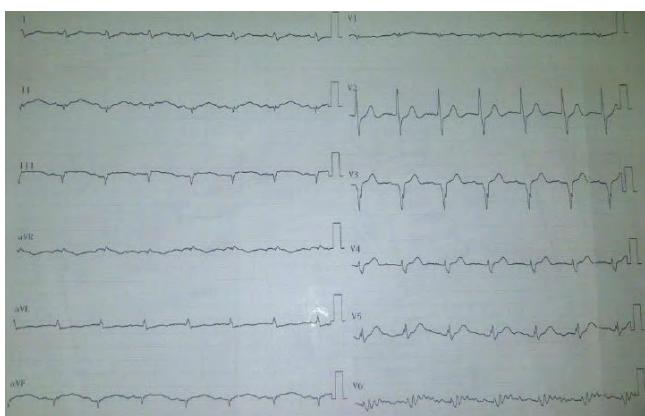


Figure 2. The patient's ECG image

even higher rates of thrombosis.

Trousseau's syndrome can be confused with recurrent cerebro-vascular events and with Sneddon syndrome characterized by livedo reticularis. This syndrome is more often seen in women in their third or fifth decades [8].

As a conclusion;

1. Since patients who have malignancy history have a higher possibility of developing acute thrombus, these patients should be checked with more frequent intervals.
2. Physicians should be alert for secondary ischemia in cancer patients presenting ischemic manifestations such as acute MI or acute stroke.
3. Patients who have malignancy should have their systemic examination in the emergency services after their detailed history is taken and it should be taken into consideration that the patient's clinic can get worse at the follow-up.

#### **Competing interests**

The authors declare that they have no competing interests.

#### **References**

1. Varki A. Trousseau's syndrome: multiple definitions and multiple mechanisms. *Blood* 2007; 110:1723-9.
2. Graus F, Rogers LR, Posner JB. Cerebrovascular complications in patients with cancer. *Medicine (Baltimore)* 1985;64:16-35.
3. Maraveyas A, Johnson M. Does clinical method mask significant VTE-related mortality and morbidity in malignant disease? *Br J Cancer* 2009; 100:1837-41.
4. Levine M. Treatment of thrombotic disorders in cancer patients. *Haemostasis* 1997; 27 Suppl 1:38-43.
5. Sack GH Jr, Levin J, Bell WR. Trousseau's syndrome and other manifestations of chronic disseminated coagulopathy in patients with neoplasms: clinical, pathophysiological, and therapeutic features. *Medicine (Baltimore)* 1977; 56:1-37.
6. Woerner EM, Rowe RL. Trousseau's syndrome. *Am Fam Physician* 1988; 38:195-201.
7. Donati MB. Cancer and thrombosis: from Phlegmasia alba dolens to transgenic mice. *Thromb Haemost* 1995; 74:278-81.
8. Sancioglu H, Gurcay E, Karaahmet OZ, Cakci A. Factor V Leiden Mutation Associated with Sneddon Syndrome. *J Clin Anal Med* 2013; DOI: 10.4328/JCAM.2006.

#### **How to cite this article:**

Yigit M, Turkdogan KA, Sogut O, Yigit E, Yaman A. Co-occurrence of Acute Coronary Syndrome and Stroke: Trousseau's Syndrome. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 443-5.



## Anomalous Origin of the Left Coronary Artery from the Pulmonary Artery (ALCAPA) in an Adult

### Yetişkin Bir Hastada Pulmoner Arterden Orjin Alan Sol Ana Koroner Arter Çıkış Anomalisi

Sol Ana Koroner Arter Çıkış Anomalisi / Anomalous Origin of the Left Main Coronary Artery

Yunus Nazli<sup>1</sup>, Omer Nuri Aksoy<sup>1</sup>, Kemal Korkmaz<sup>2</sup>, Ismail Olgun Akkaya<sup>1</sup>, Necmettin Colak<sup>1</sup>

<sup>1</sup>University of Turgut Ozal, Faculty of Medicine, <sup>2</sup>Numune Research and Training Hospital, Department of Cardiovascular Surgery, Ankara, Turkey

#### Özet

Garland-Bland-White olarak bilinen sol ana koroner arterin anormal olarak pulmoner arterden çıkışması, oldukça nadir fakat ölümcül bir konjenital kardiyovasküler anomalidir ve sıklıkla izole bir durumdur. Biz göğüs ağrısı ve nefes darlığı şikayeti nedeniyle cerrahi düzeltme gerektiren pulmoner arterden köken alan sol ana koroner arter çıkış anomalili 32 yaşında alışılmadık bir hastayı sunduk. Bu anomalili basitçe sol ana koroner arterin bağlanması ve koroner arter bypass greft operasyonu ile onarıldı.

#### Anahtar Kelimeler

Konjenital Kalp Anomalisi; Koroner Arter Bypass Greftleme

#### Abstract

Anomalous origin of the left main coronary artery from the pulmonary artery (ALCAPA), also known as Garland-Bland-White syndrome, is an extremely rare but potentially fatal congenital cardiovascular anomaly and it often exists as an isolated condition. We report an unusual case of a 32 years-old patient with ALCAPA presenting with chest pain and dyspnea who underwent surgical correction of this rare anomaly. This anomaly was simply repaired by the combination of LMCA ligation and coronary artery bypass grafting.

#### Keywords

Congenital Heart Defect; Coronary Artery Bypass Grafting

DOI: 10.4328/JCAM.2501

Received: 18.04.2014 Accepted: 30.04.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 446-8

Corresponding Author: Yunus Nazli, Alparslan Turkes Cad. No: 57 Emek, Ankara, 06510, Turkey.

T: +903122035186 E-Mail: yunusnazli@gmail.com

## Introduction

The anomalous origin of the left main coronary artery from the pulmonary artery (ALCAPA) was first described in 1866. The first clinical description, in conjunction with autopsy findings, was described by Bland and colleagues in 1933, so the anomaly is also called as the Bland-White-Garland syndrome [1]. ALCAPA is a rare congenital cardiovascular defect with an incidence of 1 in 300,000 live births. It is the most common anomaly of the coronary vasculature, with a frequency of 0.5% of all congenital cardiac defects [2]. An embryological defect during fetal cardiac development leads to the left coronary artery arising from the pulmonary artery instead of the aorta. In patients with ALCAPA the pulmonary vascular resistance and pulmonary arterial pressure decrease shortly after birth, along with oxygen content of the pulmonary artery [3]. This causes a drop in antegrade flow and oxygen content of the anomalous left coronary artery, leading to myocardial ischemia. This may progress to myocardial infarction during periods of increased myocardial oxygen consumption. Collateral circulation between the right and left coronary systems ensues and left coronary artery flow reverses and enters in the pulmonary trunk due to the low pulmonary arterial pressure (coronary steal phenomena). Consequently, the myocardium remains inadequately perfused (fixed ischemia).

We report an unusual case of a 32 years-old patient with ALCAPA presenting with chest pain and dyspnea who underwent surgical correction of this rare anomaly.

## Case Report

A 32-year-old woman referred to our center with complaints of chest pain and dyspnea on exertion for three months, which was evaluated as in New York Heart Association (NYHA) functional class II. She had almost been normal during her life, carrying out her ordinary daily activities without limitation. There was no history of systemic hypertension, diabetes, or dyslipidemia. At presentation, blood pressure was normal. There was no murmur. A twelve-lead electrocardiogram showed normal sinus rhythm and without any Q wave or ST-T changes. Chest X-ray showed marked pulmonary venous congestion. Laboratory data were normal. Transthoracic echocardiography demonstrated left ventricular hypertrophy; left atrial dilatation (46 mm), slightly decreased left ventricular ejection fraction [LVEF = 55%] and mild mitral insufficiency and pulmonary artery pressure was 35 mmHg. The patient was transferred to the cardiac catheterization laboratory for coronary angiography and further evaluation. Coronary angiography showed an anomalous left coronary artery arising from the posterolateral of common pulmonary artery with retrograde filling through collaterals from a highly developed apparent right coronary artery (Figure 1). Multi-detector computed tomographic (CT) angiography revealed ALCAPA. Left main coronary artery originated from main pulmonary trunk (figure 1). Calibration of the main pulmonary artery was measured as 28 mm. The left main coronary artery ends in the form of trifurcation. Calibration of the LAD was increased and measured as 20 mm. Calibration of the left circumflex artery was within the normal range of 4 mm wide. Intermediate artery was patent. The left atrium was dilated and measured as 47 mm. Right coronary artery was dilated.

At operation, aortic cannulation and venous cannulation through right atrium was performed following median sternotomy. Then we started cardiopulmonary bypass. Patient was cooled at 28°C degree and aorta was cross-clamped. Cardiac arrest was obtained by anterograde and retrograde cardioplegia. The anomalous origin of the left main coronary artery was sutured with the pledgeted polypropylene sutures from the pulmonary artery. Then, the left internal mammary artery was grafted to the LAD and saphenous vein was grafted to the Circumflex artery (figure 2).

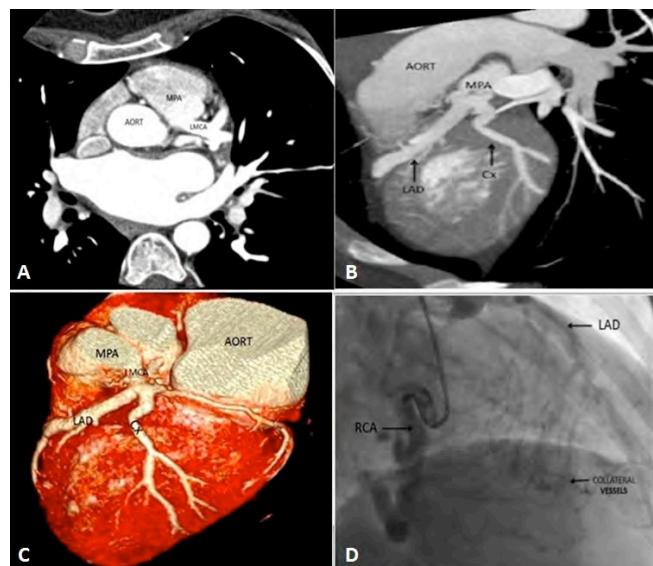


Figure 1. (A) Coronary CT-angiography showing an anomalous origin of the left main coronary artery (LMCA) from the main pulmonary artery (MPA). Axial (A), curved multilane reconstruction (B) and Volume-rendered reformation (C). (D) Coronary angiography of the right coronary artery showing collateral filling of the left coronary vascular territory, which connects directly to the pulmonary trunk.

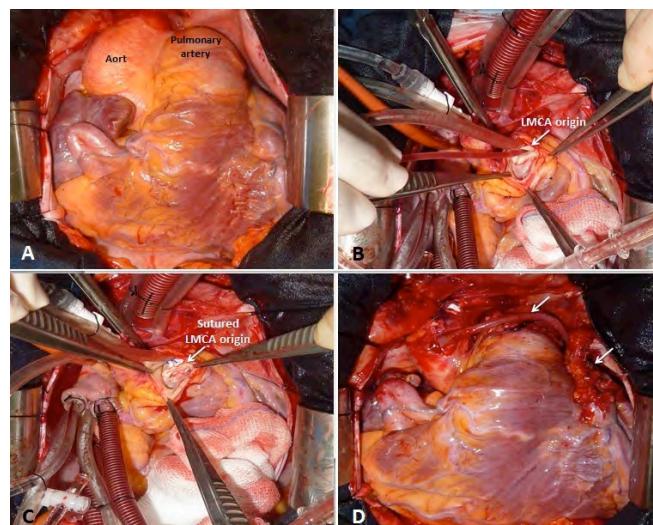


Figure 2. Operative photographs showing (A) extended right coronary artery, left anterior descending artery, (B) left main coronary artery origin in the pulmonary artery, (C) sutured LMCA origin, (D) coronary artery bypass grafts (with left internal thoracic artery and saphenous vein).

## Discussion

Anomalous connection of left coronary artery to pulmonary trunk is a rare condition, occurring in 0.26% of patients with congenital heart disease undergoing cardiac catheterization [4]. The anomalous left main coronary artery (LMCA) connects most often to the sinus of Valsalva immediately above the left

or posterior cusp of the pulmonary trunk and rarely from that above the right cusp [5,6]. The left main coronary artery is of variable length but usually divides into anterior descending and circumflex branches within 5 or 6 mm of its origin. Collateral communications between right and left coronary arteries are always present but vary in extent and are grossly visible in only a few cases, mainly in adults. Uncommonly, only the circumflex branch connects anomalously to the pulmonary trunk, and rarely only the left anterior descending branch connects anomalously [7,8]. The left ventricle is always hypertrophied and usually greatly dilated, with dilatation often involving primarily the left ventricular apex [9]. Several pathologic features may result in mitral valve regurgitation. The chest radiograph may be normal or may show cardiac enlargement.

85% of all cases of ALCAPA present within the first two months of life. About 65% of infants born with it die during the first year from intractable left ventricular failure [6]. If death does not occur during the first year, the hazard lessens considerably and the chronic phase of natural history is reached. Survival to this stage may be related to presence of rich interarterial collaterals, possibly associated with a slightly restrictive opening between left coronary artery and pulmonary trunk. Many such patients are in good health, and a few have normal ECGs. Survival beyond the first year may also be related to marked right coronary dominance, with this vessel supplying not only the diaphragmatic portion of the left ventricle but also much of the septum and lateral wall [6]. When severe symptoms do not occur in infancy, presentation is often delayed to beyond age 20 years. In our case, Collateral circulation from the right coronary artery is apparently adequate to prevent massive infarction [10]. Nowadays, the prognosis for patients with ALCAPA is dramatically improved as a result of both early diagnosis using echocardiography with color flow mapping, electrocardiographically gated multi-detector CT angiography and Coronary angiography.

Several surgical techniques have been tried, but each has a drawback. Direct re-implantation of the left main coronary artery into the aorta is often technically difficult especially in adults, due to the distance between the aorta and the anomalous orifice. The combination of LMCA ligation and coronary artery bypass grafting (CABG) is the best technique in this era. The other surgical technique is a creation of a baffle through the pulmonary artery (Takeuchi procedure). Although re-implantation of the LMCA to the aorta remains the most physiological correction for this anomaly, the combination of LMCA ligation and CABG provides a dual coronary flow system and is preferable when re-implantation is impossible. In our case, re-implantation of the LMCA to the aorta was considered unfeasible because of the distance between the insertion site of the LMCA on the pulmonary artery and the aorta. Therefore, the combination of LMCA ligation and CABG was preferred because of technically simple technique in this case. The left internal mammary artery was used to graft the anomalous left coronary artery in our patient. It has satisfactorily established antegrade flow into the left coronary artery and should maintain patency. Restoration of a dual coronary system will prevent further ischemia and arrhythmias of acute ischemic origin, but the anatomical substrate for ventricular arrhythmias in patients with old MI will

not be altered after revascularization.

#### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

#### References

1. Brooks HS. Two Cases of an Abnormal Coronary Artery of the Heart Arising from the Pulmonary Artery: With some Remarks upon the Effect of this Anomaly in producing Cirsoid Dilatation of the Vessels. *J Anat Physiol* 1885;20(1):26-9.
2. Bland EF, White PD, Garland J: Congenital anomalies of the coronary arteries: Report of an unusual case associated with cardiac hypertrophy. *American Heart Journal* 1933;8:787-801.
3. Riedel M, Hall RJC, Haworth SG. Disorders of the pulmonary circulation. In: Julian DG, Camm AJ, Fox KM, Hall RJC, Poole-Wilson PA, editors. *Diseases of the Heart*. London: WB Saunders; 1996. p.1237-63.
4. Askenazi J, Nadas AS. Anomalous left coronary artery originating from the pulmonary artery. Report on 15 cases. *Circulation* 1975;51(6):976-87.
5. Smith A, Arnold R, Anderson RH, Wilkinson JL, Qureshi SA, Gerlis LM, et al. Anomalous origin of the left coronary artery from the pulmonary trunk. Anatomic findings in relation to pathophysiology and surgical repair. *J Thorac Cardiovasc Surg* 1989;98(1):16-24.
6. Wesselhoeft H, Fawcett JS, Johnson AL. Anomalous origin of the left coronary artery from the pulmonary trunk. Its clinical spectrum, pathology, and pathophysiology, based on a review of 140 cases with seven further cases. *Circulation* 1968;38(2):403-25.
7. el Habbal MM, de Leval M, Somerville J. Anomalous origin of the left anterior descending coronary artery from the pulmonary trunk: recognition in life and successful surgical treatment. *Br Heart J* 1988;60(1):90-2.
8. Roberts WC, Robinowitz M. Anomalous origin of the left anterior descending coronary artery from the pulmonary trunk with origin of the right and left circumflex coronary arteries from the aorta. *Am J Cardiol* 1984;54(10):1381-3.
9. Rittenhouse EA, Doty DB, Ehrenhaft JL. Congenital coronary artery cardiac chamber fistula. *Ann Thorac Surg* 1975;20(4):468-85.
10. Moodie DS, Fyfe D, Gill CC, Cook SA, Lytle BW, Taylor PC, et al. Anomalous origin of the left coronary artery from the pulmonary artery (Bland-White-Garland syndrome) in adult patients: long-term follow-up after surgery. *Am Heart J* 1983;106(2):381-8.

#### How to cite this article:

Nazli Y, Aksoy ON, Korkmaz K, Akkaya İO, Colak N. Anomalous Origin of the Left Coronary Artery from the Pulmonary Artery (ALCAPA) in an Adult. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 446-8.



## A Case of Lung Adenocarcinoma Mimicking Interstitial Lung Disease

### İnterstitial Akciğer Hastalığı Görünümünde Akciğer Adenokarsinomu Olgusu

IAH Görünümünde Adenokarsinom / ILD Mimicking Adenocarcinoma

Tevfik İlker Akçam<sup>1</sup>, Ayşe Gül Ergönül<sup>1</sup>, Ufuk Çağırıcı<sup>1</sup>, Alpaslan Çakan<sup>1</sup>, Ali Veral<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Göğüs Cerrahisi Anabilim Dalı, <sup>2</sup>Patoloji Anabilim Dalı, Ege Üniversitesi, Tıp Fakültesi, İzmir, Türkiye

Bu çalışmanın bir kısmı TÜSAD 33. Yıllık Kongresi 2011'de sunulmuştur.

#### Özet

Diffüz interstitial akciğer hastalıkları adı altında, akciğerin interstitial ve alveoler kompartmanlarını etkileyen birçok hastalık yer almaktır ve nadir de olsa bu radyolojik görünümü veren malign hastalıklar ile karşılaşılabilir. Bu yazında, nefes darlığı ve öksürük şikayeti nedeniyle incelenip interstitial akciğer hastalığı ön tanısı konulan bir hasta sunulmaktadır. Taniyi kesinleştirmek için yapılan konvansiyonel girişimlerde kesin tanıya ulaşılmadığından videotorakoskopik parankim biyopsisi yapılmış ve patolojik inceleme sonucu müsinöz adenokarsinom tanısı konmuştur.

#### Anahtar Kelimeler

Akciğer; İnterstitial Hastalık; Adenokarsinom

#### Abstract

Diffuse interstitial lung disease is the name for large group of diseases that including many pulmonary pathology which affects to interstitial and alveolar compartments. These titles rarely seen in the carcinomatous formations seeing in this radiological view. A case is reported that the patient has been examined because of suffering from shortness of breath and cough, and pre-diagnosed with interstitial lung disease, in this article. Parenchymal biopsy was performed videothoracoscopy in that definitive diagnosis could not be reached in the end of conventional explorations. Pathological result reported as primary mucinous adenocarcinoma of lung.

#### Keywords

Lung; Interstitial Disease; Adenocarcinoma.

DOI: 10.4328/JCAM.2479

Received: 11.04.2014 Accepted: 04.05.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 449-51

Corresponding Author: Tevfik İlker Akçam, Dr. Suat Seren Göğüs Hastalıkları ve Cerrahisi Eğitim ve Araştırma Hastanesi, İzmir, Türkiye.

GSM: +905386062581 F.: +90 2323904681 E-Mail: tevfikilkerakcam@hotmail.com

## Giriş

Primer akciğer karsinomları çok geniş bir radyolojik görünüm yelpazesinde karşımıza çıkabilmektedir [1]. Ancak bilateral retikülonodüler tutulum şeklinde, interstisyel akciğer hastalığı (IAH) izlenimi veren bir görünümde olmaları alışışlagelmiş bir durum değildir. Bilindiği gibi interstisyel akciğer hastalıkları başlığı altında özellikle radyolojik olarak birbirine benzerlik gösteren birçok hastalık gruplandırılmaktadır [2,3]. Bu başlıklar içerisinde karsinomatoz oluşumlar nadir de olsa görülebilmektedir. Bu tür durumlarda ayrıca tanıya gitmek, hastaların definitif tedavisi için önemlidir. Bu yüzden hastalara en doğru ve en hızlı şekilde sonuç verecek tanısal yöntem seçilmelidir. Bu yöntemlerden biri de videotorakoskopik cerrahi (VATS)'dır. Bu yazida, IAH ön tanısı ile izlenen, ancak VATS ile biyopsi sonucunda primer akciğer karsinomu tanısi alan bir olgu sunulmaktadır.

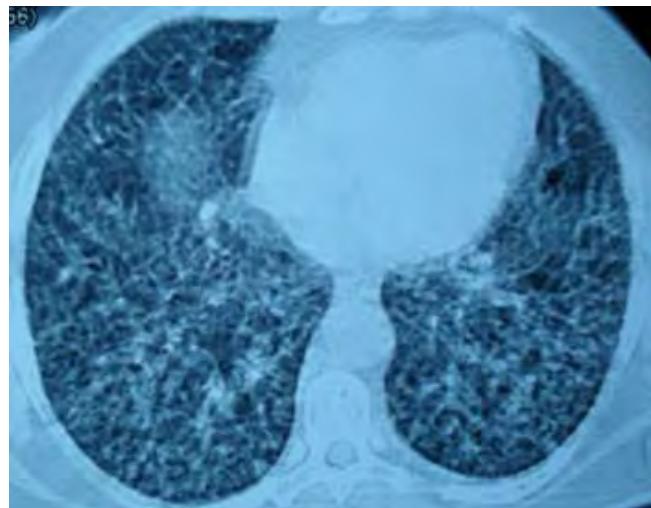
## Olgu Sunumu

Nefes darlığı ve öksürük şikayeti bulunan 64 yaşındaki kadın hastanın fizik muayenesinde bilateral akciğerlerde raller duyuldu. Bunun dışında anlamlı bir fizik muayene bulgusu yoktu. FEV1 değeri 1820 ml (%72) olan hastanın arterial kan gazi değerlerinde hipoksi izlenmedi. Biyokimyasal tetkiklerinde patolojik bulgu saptanmadı. Sigara ve alkol kullanımı, allerji öyküsü bulunmayan olgunun radyolojik incelemelerinde, akciğer grafisinde bilateral retikülonodüler patern (Şekil 1) izlendi. Yine toraks bilgisayarlı tomografisinde de bilateral akciğerlerde interlobüler septal kalınlaşmalar ve multipl nodül formasyonları (Şekil 2) mevcuttu.

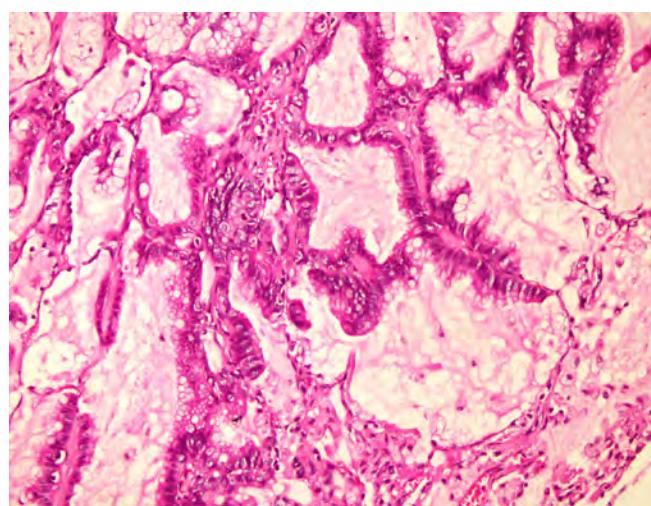
Bu bulgular eşliğinde IAH ön tanısı alan hastaya yapılan bronkoskopi ile kesin tanıya ulaşlamadığından VATS ile parankim biyopsisi planlandı. Hastanın pre-operatif BT değerlendirmesinde diffüz bir tutulum söz konusu olduğu ve belirgin bir özellik arz eden nodül formasyonu görülmemişinden hastaya sağ akciğer alt lob süperior segmentten parankimal biyopsi uygulandı. Postoperatif komplikasyon gelişmedi. Hasta üçüncü gün eksterne edildi. Patoloji preparatlarının incelenmesi sonrasında interstisyel akciğer hastalıklarına ait bir bulguya rastlanılmadı. İleri incelemelerde sitokeratin 7 (+), sitokeratin 20 (-) olarak saptanması üzerine hasta "primer akciğer müsinöz adenokarsinomu" tanısı aldı. Akciğerde oluşan tüm patolojinin müsinöz adenokarsinom tarafından oluşturulduğu anlaşıldı (Şekil 3). Göğüs hastalıkları hekimlerince hastaya kemoterapi başlandı.



Şekil 1. Akciğer grafisinde bilateral retikülonodüler patern.



Şekil 2. Toraks bilgisayarlı tomografisinde de bilateral akciğerlerde interlobüler septal kalınlaşmalar ve multipl nodül formasyonları.



Şekil 3. Patolojik görüntü; preparatın tamamı tümörden oluşmaktadır.

## Tartışma

Halen dünyada mortaliteye en fazla yol açan kanser türü olan primer akciğer karsinomlarının tanısında radyolojik görüntüleme ilk basamaktır. Milimetrik boyutlu bir nodül ile tüm parankimi kaplamış bir kitle şeklinde karşımıza çıkan bu yelpazede nadir de olsa bilateral diffüz parankimal tutulular da görülebilmektedir. İşte bu gibi bir durumda tanıya yaklaşımda gecikmeler yaşanabilecektir ve tedavi sürecinde geç kalınmaktadır.

Özellikle kaviter lezyonlar ile diffüz parankimal tutulum gösterebilen lezyonlar, süpüratif parankim hastalığı veya IAH ile karışabilmektedir. Özellikle IAH gibi benzer klinik ve radyolojik özelliklere sahip çeşitli hastalık alt gruplarının ayrıca tanısında ayrıntılı anamnez (çevresel maruziyet), radyolojik görüntüleme, balgam analizi, serolojik testler, solunum fonksiyon testleri, bronkoskopî ve bronkoalveoler lavaj, transbronşial akciğer biyopsisi kullanılarak yapılan yöntemlerdir [2,3]. Tüm bunlara rağmen kesin tanıya ulaşmada geciktirilmeden doku tanısına gidilmelidir.

Olgumuzda da tanıya yönelik yapılan işlemlerde bir sonuca varılanamış ve hastaya VATS ile parankim biyopsisi uygulanmıştır. Patolojik inceleme sonucunda primer akciğer müsinöz adenokarsinomu (sitokeratin pozitif) tanısı konmuştur. Bununla ilgili olarak yapılan bir araştırmada Mutton ve ark. deskuamatif interstisyel pnömoni ile akciğer adenokarsinomu ayrıci tanısında

sitokeratin pozitifliğinin önemine işaret etmektedirler [4].

Bilindiği gibi akciğer adenokarsinomlarının sınıflandırmasında onkoloji, cerrahi, radyoloji ve özellikle moleküler biyoloji alanındaki gelişmeler, daha ayrıntılı ve prognostik belirleyiciliğe sahip bir sınıflama gerekliliğini ortaya koymuştur. Bu amaçla yapılan çalışmalarda tümörün özellikle invazyon durumu göz önüne alınarak yeni bir sınıflama oluşturulmaya çalışılmıştır. Böylelikle adenokarsinom sınıflaması üç ana başlık altında toplanarak pre-invaziv lezyonlar, invaziv adenokarsinom ve invaziv adenokarsinom varyantları olarak sınıflandırılmıştır. Buna ek olarak yeni sınıflandırmanın en önemli amacı histolojik subtiplerin kompleks heterojen karışıntılarından oluşan adenokarsinomların tanımlanmasına ortak pratik bir yol bulunması olmuştur. Histolojik subtiplerin kapsamlı tanımlanması yeni sınıflandırmada en önemli değişiklik olarak dikkat çekmektedir [5]. Olgudaki tanı daha önce bronkoalveoler adenokarsinom olarak tanımlanırken bu alt sınıf değiştirilmiş ve adenokarsinoma in-situ, minimal invaziv adenokarsinoma, lepidic predominant adenokarsinoma, invaziv musinöz adenokarsinoma adı altında daha spesifik alt gruplara ayrılmıştır.

VATS'ın parankim biyopsisinde tanı etkinliğinin %95-100, komplikasyon oranının %10, mortalite oranının %0-1 civarında olduğu bildirilmektedir [6,7,8]. Özellikle VATS konusunda yeni geliştirilen teknikler ile tek porttan girişim yapılmaktadır [9]. Tanı konamayan bunun gibi durumlarda beklenmeden VATS ile parankim biyopsisinin olası gecikmeleri önleyebileceğinin kanısındayız.

#### **Çıkar Çağışması ve Finansman Beyanı**

Bu çalışmada çıkar çağışması ve finansman destek alındığı beyan edilmemiştir.

#### **Kaynaklar**

1. Sieder L. Radiographic manifestations of primary bronchogenic carcinoma. The Radiol Clin North Amer 1990;28(3):583-97.
2. Travis WD, Costabel U, Hansell DM et al. An official American Thoracic Society / European Respiratory Society Statement: Update of the International multidisciplinary of the idiopathic interstitial pneumonias. Am J Respir Crit Care Med 2013;188(6):733-48.
3. American Thoracic Society / European Respiratory Society International Multidisciplinary Consensus Classification of the Idiopathic Interstitial Pneumonias. Am J Respir Crit Care Med 2002;165(2):277-304.
4. Mutton AE, Hasterton PS, Curry A et al. Differentiation of desquamative interstitial pneumonia (DIP) from pulmonary adenocarcinoma by immunocytochemistry. Histopathology 1998;33(2):129-35.
5. Russell PA, Wainer Z, Wright GM, Daniels M, Conron M, Williams RA. Does lung adenocarcinoma subtype predict patient survival? A clinicopathologic study based on the new International Association for the Study of Lung Cancer / American Thoracic Society / European Respiratory Society. International multidisciplinary lung adenocarcinoma classification. J Thorac Oncol 2011;6(9):1496-504.
6. McKenna RJ Jr, Mahtabifard A, Pickens A, Kusuano D, Fuller CB. Fast-tracking after video-assisted thoracoscopic surgery lobectomy, segmentectomy, and pneumonectomy. Ann Thorac Surg 2007;84(5):1663-7.
7. Rena O, Casadio C, Leo F, et al. Videothoracoscopic lung biopsy in the diagnosis of interstitial lung disease. Eur J Cardiothorac Surg 1999;16(6):624-7.
8. Celik M, Halezeroglu S, Senol C, et al. Video-assisted thoracoscopic surgery Experience with 341 cases. Eur J Cardiothorac Surg 1998;14(2):113-6.
9. Rocco G, Khalil M, Jutley R. Uniportal video-assisted thoracoscopic surgery wedge lung biopsy in the diagnosis of interstitial lung diseases. J Thorac Cardiovasc Surg 2005;129(4):947-8.

#### **How to cite this article:**

Akçam Tİ, Ergönül AG, Çağırıcı U, Çakan A, Veral A. A Case of Lung Adenocarcinoma Mimicking Interstitial Lung Disease. J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 449-51.



## Postoperative Spinal Epidural Haematoma Causing Cauda Equina Syndrome: Case Report

### Kauda Ekuina Sendromuna Neden Olan Postoperatif Spinal Epidural Hematom: Olgı sunumu

Postoperative Spinal Epidural Haematoma / Postoperatif Spinal Epidural Hematom

Emre Delen<sup>1</sup>, Barış Birgili<sup>1</sup>, Ahmet Tolgay Akıncı<sup>2</sup>, Selçuk Yavuz<sup>3</sup>

<sup>1</sup>Edirne State Hospital Dept. of Neurosurgery, <sup>2</sup>Trakya University Dept. of Neurosurgery,

<sup>3</sup>Edirne State Hospital Dept. of Physiotherapy and Rehabilitation, Edirne, Türkiye

#### Özet

Kauda ekuina sendromu, kauda ekuinaya bası sonucu, idrar ve/veya anal sfinkter fonksiyon bozukluğu ile giden, bilateral siyatalji ağrısı ve bilateral kuvvet ve duyu kaybı olan nörolojik bir tablodur. Etyolojide lomber disk hastalığı, spinal dar kanal, tümör, hematom, fraktür, infeksiyon ve anki洛an spondilit yer alır. Spinal epidural hematom, lomber spinal cerrahi sonrasında sık görülen komplikasyonlar arasında yer alır. Ancak vakaların çoğu asemptomatik olup, klinik karşılığı yoktur. Postoperatif dönemde gelişen semptomatik spinal epidural hematom, ciddi bir komplikasyon olup, kalıcı nörolojik defisite engel olmak amacıyla acil cerrahi müdahale gerektirir.

#### Anahtar Kelimeler

Spinal Epidural Hematom; Postoperatif Komplikasyon; Kauda Equina Sendromu

#### Abstract

Cauda equina syndrome is a neurological disorder defined by urinary and/or anal sphincter dysfunction, bilateral sciatica and bilateral motor and sensory deficits. Regarding the etiology, lumbar disc disease, spinal stenosis, tumors, haematomas, fractures, infectious diseases and ankylosing spondylitis are pathologies causing this syndrome. Spinal epidural haematomas are common amongst complications after spinal surgery. However the majority of these cases are asymptomatic, thus having little clinical importance. Symptomatic postoperative spinal epidural haematomas is a serious complication, and in order to prevent permanent neurologic deficit it requires urgent surgical intervention. This article aims to present the case of a patient with a spinal epidural haematoma after spinal stenosis surgery, causing cauda equina syndrome.

#### Keywords

Spinal Epidural Hematom; Postoperative Complications; Cauda Equina Syndrome

DOI: 10.4328/JCAM.2480

Received: 10.04.2014 Accepted: 04.05.2014 Printed: 01.08.2013

J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 452-4

Corresponding Author: Emre Delen, Edirne Devlet Hastanesi Beyin Cerrahisi Kliniği, Edirne, Türkiye.

GSM: +905306144646 F.: +90 2845138305 E-Mail: emredelen1979@yahoo.com

## Introduction

Cauda equina syndrome is a neurological disorder defined by urinary and/or anal sphincter dysfunction, bilateral sciatica and bilateral motor and sensory deficits. Regarding the etiology, lumbar disc disease, spinal stenosis, tumors, haematomas, fractures, infectious diseases and ankylosing spondylitis are pathologies causing this syndrome [1]. Asymptomatic spinal epidural haematoma after lumbar spinal surgery are frequent [2], although a haematoma causing cauda equina syndrome is rare [3]. This article aims to present the case of a patient with a spinal epidural haematoma after spinal stenosis surgery, causing cauda equina syndrome.

## Case Report

A 74 years old woman suffering from severe back pain and bilateral sciatica is admitted to our clinic. Patient's history revealed that her complaints had exagereted in the last month and that she didn't relived despite opioid group painkillers admitted on various other medical centers. The pain caused by walking and painless walking distance shorter than ten meters are considered as neurogenic claudication. Physical examination findings were anthropiod posture, no motor deficits, bilateral L5/S1 dermatomal hypoesthesia and bilateral hypoactive Achilles reflexes. Lumbar spinal MRI showed spinal canal stenosis at L3/L4 and L4/L5 levels and lumbar scoliosis. Myelography confirmed the findings as well as showing a full blockage at L3/L4 level. A surgical treatment of fixation via bilateral L3, L4, L5 transpedicular screw-rod instrument system + decompression via L3, L4 total laminectomies and flavectomies is planned and perfomed according to the plan without any serious peroperative complication.

Postoperative and preoperative neurologic examination had no significant difference. Postoperatively the patient is monitored in the intensive care unit for one day and then transferred to the neurosurgery inpatient clinic. Urinary catheter is withdrawn and urinary incontinence has been detected. New neurologic examination revealed urinary and fecal incontinence accompanied by a complete motor function loss of L4 and below levels. An urgent lumbar MRI revealed a massive haematoma on the surgery region compressing spinal cord (Figure 1). The patient underwent urgent haematoma evacuation surgery. The patient received physical treatment and rehabilitation postoperatively. After a treatment of 6 weeks, muscle strengths of the hip flexors and knee extensors were 5/5 and of the big toe dorsiflexors and ankle plantar flexors were 4/5. The patient had urinary but no gaita incontinence.



Figure 1. Postoperative SEH sagittal MRI.

## Discussions

Spinal epidural haematomas (SEH's) are common amongst complications after spinal surgery. However the majority of these cases are asymptomatic, thus having little clinical importance. Even though the incidence of asymptomatic SEH's is reported 33 – 100 % in the literature [2], the incidence of those requiring surgical evacuation is reported as low as 0,1 – 3% [3]. Symptomatic postoperative SEH is a serious complication, and in order to prevent permanent neurologic deficit it requires urgent surgical intervention. Consequently proceeding with caution in the postoperative period, and acting quickly when signs of cord compression are detected is vital. In the literature some case reports of cauda equina syndrome caused by SEH are available [4,5].

Aiming to prevent SEH, some risk factors have been identified. Nevertheless there is not a full consensus about the list. Age over 60 years, preoperative nonsteroidal anti-inflammatory drug use and Rh + blood type are reported as preoperative as risk factors; five or more spinal levels undergoing surgery, one litre or more peroperative bleeding and preoperative hemoglobin level below 10 g/dL are reported as peroperative risk factors [5,6]. Besides this list as risk factors, some articles report only multilevel interventions and preoperative coagulopathy as SEH risk factors [7]. Widespread opinion in daily neurosurgical practice not just for spinal surgery but for all kind of surgical procedures is that the transfusion of fresh frozen plasma, platelet suspensions and autotransfusion prepares reduces the risk of postoperative bleeding. However, studies on the use of these blood derivates report no risk reduction [5]. The authors support the opinion that avoiding excessive blood loss especially for multilevel spinal surgeries and for patients aged over 60 years old is essential.

Drain use is another controversial issue in neurosurgery practice. Our tendency is to use drains especially when patients have predictable risk factors such as diagnosed coagulopathy, advanced age and a large incision. Particularly for patients undergoing surgeries including multilevel laminectomy and spinal instrumentation which generally require an extensive incision, SEH originating from paravertebral muscle bleeding is likely [7]. Nevertheless, studies report that the use of drainage do not increase SEH risk [5,6,7] and also increase the risk of infection when left more than one day in the operation region [8].

In this paper, a case with postoperative SEH that caused cauda equina syndrome is presented. Most of the the risk factors described in the literature such as advanced age, a multilevel spinal surgery, a peroperative blood loss of more than 1 L, and a postoperative hemoglobin level under 10 g/dL were present in the patient. The subfascially placed drain, also consistent with the literature, did not prevent postoperative SEH.

## Conclusion

Symptomatic SEH after spinal surgery is a rare but serious complication that can cause neurological deficits. Due to the need for an urgent surgical intervention, in terms of postoperative follow up, patients should be monitored carefully for cord compression findings and diagnostic procedures should be performed in the shortest possible time interval when necessary.

**Competing interests**

The authors declare that they have no competing interests.

**References**

1. Ahn NU, Buchowski JM, Garrett ES, Sieber AN, Kostuik JP. Cauda equina syndrome secondary to lumbar disc herniation: a meta-analysis of surgical outcomes. *Spine* 2000;25(12):1515-22.
2. Kotilainen E, Alanen A, Erkintalo M, Helenius H, Valtonen S. Postoperative hematomas after successful lumbar microdiscectomy or percutaneous nucleotomy: a magnetic resonance imaging study. *Surg Neurol* 1994;41(2):98-105.
3. Lawton MT, Porter RW, Heiserman JE, Jacobowitz R, Sonntag VK, Dickman CA. Surgical management of spinal epidural hematoma: relationship between surgical timing and neurological outcome. *J Neurosurg* 1995;83(1):1-7.
4. Kaner T, Sasani M, Ozer AF, Cirak B. Postoperative spinal epidural hematoma resulting in cauda equina syndrome: a case report and review of the literature. *Cases J* 2009; DOI: 10.4076/1757-1626-2-8584.
5. Kebaish KM, Awad JN. Spinal epidural hematoma causing acute cauda equina syndrome. *Neurosurg Focus* 2004;16(6):e1.
6. Awad JN, Kebaish KM, Donigan J, Cohen DB, Kostuik JP. Analysis of the risk factor for the development of post-operative spinal epidural haematoma. *J Bone Joint Surg Br* 2005;87(9):1248-52.
7. Kou J, Fischgrund J, Biddinger A, Herkowitz H. Risk factors for spinal epidural hematoma after spinal surgery. *Spine* 2002;27(15):1670-3.
8. Manian FA, Meyer PL, Setzer J, Senkel D. Surgical site infections associated with methicillin-resistant *Staphylococcus aureus*: do postoperative factors play a role? *Clin Infect Dis* 2003;36(7):863-8.

**How to cite this article:**

Delen E, Birgili B, Akıncı AT, Yavuz S. Postoperative Spinal Epidural Haematoma Causing Cauda Equina Syndrome: Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 452-4.



## Postpartum Inflammatory Sacroiliitis-A Case Report

### Postpartum İnflamatuar Sakroiliit-Olgu Sunumu

Postpartum Sakroiliit / Postpartum Sacroiliitis

Şeniz Akçay Yalbuzdag<sup>1</sup>, Asiya Mukaddes Erol<sup>2</sup>, İlker Şengül<sup>1</sup>, Canan Çelik<sup>2</sup>  
<sup>1</sup>İzmir Bozyaka Education and Research Hospital, İzmir, <sup>2</sup>Şevket Yılmaz Education and Research Hospital, Bursa,  
Department of Physical Medicine and Rehabilitation, Türkiye

#### Özet

Gebelik sırasında sakroiliak eklem strainı ve septik sakroiliite predispozisyon yaratan birtakım değişiklikler oluşur. Bu yazında postpartum dönemde akut inflamatuar sakroiliit saptanan HLA B27 pozitifliği bulunan ve klinik izlem sürecinde psöriatik artrit tanısı konan bir olguyu tanımladık. Postpartum bel ağrısında inflamatuar sakroiliitin ayırcı tanılar arasında yer alması gerektiğini vurgulamayı hedefledik.

#### Anahtar Kelimeler

Sacroiliit; Postpartum; Bel Ağrısı

#### Abstract

During the pregnancy several changes occur in sacroiliac joint and pelvis which may predispose for sacroiliac joint strain and septic sacroiliitis. We describe a case of acute inflammatory sacroiliitis in a patient with HLA B27 positivity during postpartum period, and diagnosed psoriatic arthritis during the follow up period. We aimed to emphasize that inflammatory sacroiliitis should take place within differential diagnose of postpartum low back pain.

#### Keywords

Sacroiliitis; Postpartum; Low Back Pain

DOI: 10.4328/JCAM.2491

Received: 15.04.2014 Accepted: 05.05.2014 Printed: 01.08.2013 J Clin Anal Med 2013;4(suppl 4): 455-7

Corresponding Author: Şeniz Akçay Yalbuzdag, Department of Physical Medicine and Rehabilitation, İzmir Bozyaka Education and Research Hospital, İzmir, Türkiye.  
T: +90 2322505050 F: +90 2322614444 GSM: +905333798669 E-Mail: senizakcay@hotmail.com

## Introduction

During the pregnancy several changes occur in sacroiliac joint and pelvis which may be predisposing factors for sacroiliac joint strain and septic sacroiliitis [1].

Psoriatic arthritis is an inflammatory arthritis associated with psoriasis. Hereby we report postpartum acute inflammatory sacroiliitis in human leukocyte antigen HLA B-27 positive patient who had not experienced low back or hip pain associated with spondyloarthritis in her history and diagnosed psoriatic arthritis (PsA) during clinical follow up period.

## Case Report

22 year old female patient presented with low back pain since 15 days. The low back pain had began acutely, involving bilateral buttock. She described marked morning stiffness lasting 3 hours since 2 weeks. She had an history of labour by caesarean section 2 months ago. There were no trauma, inflammatory low back pain, systemic infection, urethritis, skin lesions, uveitis, conjunctivitis and gastrointestinal symptoms in her history. The family history was negative for rheumatic diseases. She had no smoking history. In physical examination, bilateral sacroiliac compression and Geanslen tests were positive. Palpation of sacroiliac joints were exquisitely painfull to direct pressure. Back pain assessed on a visual analog scale (VAS) as 9. Systemic examination and cervical, thoracal, lumbar spine and peripheral joint examination was unremarkable.

In laboratory examination serum C-reactive protein (CRP) was 6,02mg/L (Normal range 0-5mg/L), hemoglobin was 11,4 g/dL (Normal range 12-15,5 g/dL), erythrocyte sedimentation rate was 70 mm/h (Normal range 0-20 mm/h), white blood cell count was 10100/mm<sup>3</sup> (Normal range 3500-10500/mm<sup>3</sup>) (Table 1). Urine test was unremarkable. Brucella agglutination test was negative. The patient was HLA-B27 positive.

Plain radiograph of sacroiliac joint revealed bilaterally definite sclerosis on both sides of joint and we considered as grade 3 sacroiliitis (Figure 1).

Magnetic resonance imaging of sacroiliac joint showed bone marrow edema of sacroiliac joint associated with bilateral sacroiliitis that is more marked on right side (Figure 2).

Sulphasalazine treatment 500 mg twice a day and ibuprofen 1200 mg daily started. After second week, pain on VAS was 50 mm. In laboratory examination serum C-reactive protein

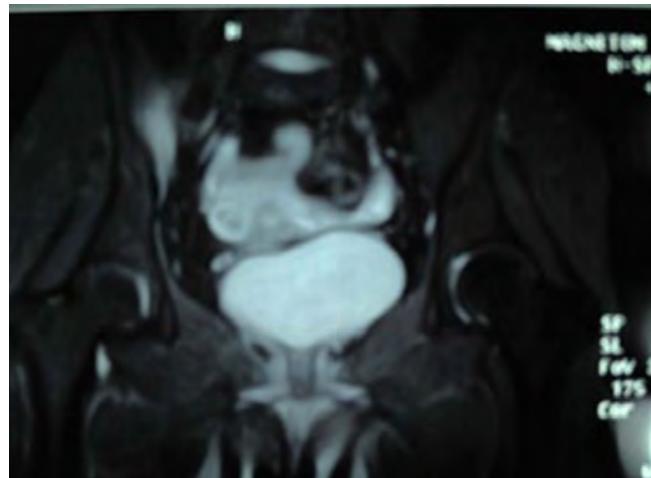


Figure 2. Bilaterally asymmetric sacroiliitis seen in magnetic resonance imaging

(CRP) was decreased to 3,19 mg/L, erythrocyte sedimentation rate was 39 mm/h. At the third follow up she reported neither low back, hip pain nor morning stiffness. By the end of one year she had not reported inflammatory low back, hip pain or peripheral arthritis but physical examination realized red squamous plaques on her abdominal skin and scalp covered with white scales. We consulted with dermatology clinic and she had diagnosed as psoriasis. She was still under treatment of non-steroidal antiinflammatory drugs.

## Discussion

Hereby we reported a HLA B 27 positive patient with acute inflammatory sacroiliitis during late postpartum period. She did not describe any symptoms of low back, hip pain, peripheral arthritis or skin lesions associated with spondyloarthritis in her history. In this report we aimed to emphasize that, sacroiliac mechanical stress during delivery may have a triggering a role in inflammatory sacroiliitis due to PsA pathogenesis when genetical predispositional factors were present.

Postpartum period is consisted of three phases. The initial or acute period involves the first 6-12 hours after delivery. The second phase is the subacute postpartum period, which lasts 2-6 weeks. The third phase is named as the delayed postpartum period, which can last up to 6 months [2].

Symptoms associated with PsA are appeared initially after the 2 months period of time after the delivery, so she was in the delayed postpartum period which is the period of recovering period.

In literature four cases were reported with inflammatory sacroiliitis in postpartum period but all were HLA B-27 negative and all were in a few days after the delivery [1]. The relaxation of pelvic joint may be responsible from sacroiliac joint strain and a secondary inflammatory process had been occurred secondary to mechanical stress [1]. Postpartum inflammatory sacroiliitis may be a self limiting condition and usually resolve in a period of few months but clinical follow up must be more intense when HLA B27 positivity present. Recently Mahovic et al. reported a case of pregnancy related posterior pelvic girdle pain during early postpartum period in a patient who has treated successfully with analgesics and physical therapy. Unlike our report the patient was HLA B27 negative, and she suffered from mostly mechanical characteristics of pain, and at the end of 2 months



Figure 1. Bilaterally derrangement and sclerosis on both sides of sacroiliac joint

her symptoms were relieved [3]. Unlike previous report, our case experienced pain with inflammatory character, and she was HLA B27 positive. The psoriatic skin lesions detected during the follow up process encouraged our diagnose of PsA.

As the retrospective analysis indicated onset of Ankylosing Spondylitis (AS) is closely related to pregnancy and delivery, our patient presented with low back pain began 2 months after the delivery. Pelvic stress during pregnancy and parturition may be effective on the onset of symptoms when genetic predisposition exist. Increased pelvic stress during pregnancy and delivery may contribute patient's symptoms and onset of inflammatory sacroiliitis [4]. The distinctive feature of our patient is, first clinical signs of inflammatory sacroiliitis started in late postpartum period and the occurrence of psoriatic lesions about a year after the onset of inflammatory low back pain. Genetical predisposition additional to mechanical factors may lead to first flare up of spondyloarthritis. To our knowledge this is the first report that described inflammatory postpartum sacroiliitis with HLA B27 positivity and diagnosed psoriatic spondyloarthritis after long period of time. However onset of psoriatic arthritis is more common after a period of time psoriatic skin lesion occur, our report is interesting that of spondyloarthritic symptoms overlap during the period of late postpartum stage, and onset of skin lesions occurred 1 year after the sacroiliitis. Mechanical factors associated with gestational period with presence of genetical predisposition to psoriasis and spondyloarthritis may be responsible of this clinical condition.

The most important differential diagnose in postpartum sacroiliac joint pain in pyogenic sacroiliitis. We did not have performed sacroiliac joint culture because there were no systemic signs of infection in our patient and we achieved good response to sulphasalazine and non-steroidal antiinflammatory medication. Also HLA-B 27 positivity confirmed our sacroiliitis diagnose associated with spondyloarthritis.

The other underlying cause of pelvic pain during peripartum period is strain of ligaments in the pelvis and lower spine resulting from a combination of damage to ligaments, hormonal effects, muscle weakness, and the weight of the fetus. Peripartum pelvic pain was associated with twin pregnancy, first pregnancy, higher age, larger weight of the baby, forceps or vacuum extraction, fundus expression, and a flexed position of the woman during childbirth and a negative association was observed with cesarean section [5]. In our patient clinics the complaint of low back or pelvic pain during postpartum period is not uncommon. However the sacroiliac joint strain or lomber strain is the most frequent diagnose, the physician must be in suspicion of inflammatory or pyogenic sacroiliitis as well. The onset of back pain during the postpartum period may be the first symptoms of spondyloarthritis.

Plasma concentrations of cytokines have been shown to change during pregnancy. Gestational increase of cytokine inhibitors interleukin 1 receptor antagonist (IL-1ra) and soluble tumor necrosis factor receptor (sTNFR) in the circulation is comply with low disease activity in RA and AS patients [6]. The decreased levels of IL-1ra and sTNFR concentration during postpartum period may be responsible for exacerbating disease activity. Our patient's onset of symptoms may be associated with the decreased level of antiinflammatory cytokines in plasma ad-

ditional to mechanical stress. The influence of hormones and cytokine levels on disease activity in patients with spondyloarthritis, especially with pregnant patients with psoriasis must be an issue for further study.

It has been defined that trauma, mechanical stress are prevalent in psoriatic arthritis. In one study 8% of patients with PsA experienced trauma history within 3 months before onset of the disease while this ratio is only 2% in patients with RA [7]. Biomechanical stress may lead microtrauma, with activation of stress genes and upregulation of adhesion molecules. McGonagle et al assumed that, in patients, those with HLA B27 antigen, microtrauma or microbial factor at the diseased site upregulate the proinflammatory cytokines, and homeostasis may shift from repair to inflammation [8]. The third stage of postpartum period (6 weeks-6 months) is the time of restoration of muscle tone and connective tissue to the prepregnant state [2]. The repairing process may have been shifted to inflammation and initiated the inflammatory sacroiliitis associated with PsA, with the presence of HLA B27 positivity. Postpartum initiation of sacroiliitis in addition to mechanical stress of sacroiliac joints during pregnancy, and delivery can suggest, posttraumatic-onset PsA in our patient.

In conclusion inflammatory sacroiliitis may be the cause of low back pain during postpartum period, and the mechanical stress due to sacroiliac joint may lead inflammatory reaction triggering sacroiliitis, associated with PsA.

### Competing interests

The authors declare that they have no competing interests.

### References

1. Floman Y, Milgrom C, Gomori JM, Kenan S, Ezra Y, Liebergall M. Acute postpartum inflammatory sacroiliitis. A report of four cases. *J Bone Joint Surg Br*. 1994;76(6):887-90.
2. Mattea Romano, Alessandra Cacciatore, Rosalba Giordano, and Beatrice La Rosa. Postpartum period: three distinct but continuous phases. *J Prenat Med* 2010;4(2): 22-5.
3. Mahovic D, Zerjavic-Laktasic N, Tudor KI, Mercep I, Prutki M, Anic. Pregnancy-related severe pelvic girdle pain caused by unilateral noninfectious sacroiliitis. *Z Rheumatol* 2014; DOI: 10.1007/s00393-013-1323-6
4. Østensen M, Romberg O, Husby G. Ankylosing spondylitis and motherhood. *Arthritis Rheum* 1982;25(2):140-3.
5. Mens JM, Vleeming A, Stoeckart R, Stam HJ, Snijders CJ. Understanding peripartum pelvic pain: implications of a patient survey. *Spine* 1996;21(11):1363-9.
6. Østensen M, Förger F, Villiger PM. Cytokines and pregnancy in rheumatic disease. *Ann N Y Acad Sci* 2006;63:1069:353-63.
7. Punzi L, Pianon M, Bertazzolo N, Fagiollo U, Rizzi E, Rossini P, Todesco S. Clinical laboratory and immunogenetic aspects of post-traumatic psoriatic arthritis: a study of 26 patients. *Clin Exp Rheumatol* 1998;16(3):277-81.
8. McGonagle D, Stockwin L, Isaacs J, Emery P. An enthesitis based model for the pathogenesis of spondyloarthropathy. Additive effects of microbial adjuvant and biomechanical factors at disease sites. *J Rheumatol* 2001;28(10):2155-9.

### How to cite this article:

Yalbuzdag SA, Erol AM, Şengül İ, Çelik C. Postpartum Inflammatory Sacroiliitis-A Case Report. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 455-7.

## Radiologic Findings of Distal Ureter with Partially Double Lumen: First Case in the Literature

## Parsiyel Çift Lümenli Distal Üreterin Radyolojik Bulguları: Literatürdeki İlk Olgu

Parsiyel Çift Lümenli Distal Üreter / Distal Ureter with Partially Double Lumen

Elif Karadeli<sup>1</sup>, Şerife Nur Ulusan<sup>1</sup>, Özgür Yaycioğlu<sup>2</sup>

<sup>1</sup>Radyoloji Bölümü, <sup>2</sup>Üroloji Bölümü, Başkent Üniversitesi, Tıp Fakültesi, Ankara, Türkiye

### Özet

Üriner sistemin en sık konjenital anomalisi üreter duplikasyonudur. Üreter duplikasyonu tamamiyla ayrı üreterden bifid pelvise kadar değişim göstermektedir. Rapor edilen insidans otopsi serilerinde %0.8, pyelografi incelemelerinde %40'a kadar değişmektedir. Tek taraflı form bilateral olana göre 6 kez daha sık gelişir, sol ve sağ taraf eşit olarak tutulur. Bilinen taş hastalığı olmayan 37 yaşında erkek olgu 3 saatlik süren sağ yerleşimli kolik ağrı ile üroloji bölümümüze başvurdu. Ultrasonografi ve Bilgisayarlı Tomografi (BT) yapıldı. Biz parsiyel çift lümenli distal üreterin radyolojik bulgularını gösterdik. Bizim bilgilerimize göre, bu literatürde daha önce rapor edilmemiştir.

### Anahtar Kelimeler

Üreter; Çift Lümen; Radyoloji; Bulgular

### Abstract

Ureter duplication is the most common congenital anomaly of the urinary system. Ureteral duplication varies from a bifid pelvis to completely separate ureters. The reported incidence varies from 0.8% in an autopsy series, to 40% in a pyelography review, and displays a wide spectrum of imaging findings. The unilateral form occurs about 6 times more commonly than the bilateral form, with the left and right sides being almost equally involved. A 37 year old male with no previous history for stone disease presented to the urology department with right sided colicky pain for three hours. Ultrasonography and Computurized Tomography (CT) were performed. We demonstrated radiologic findings of distal ureter with partially double lumen. According to our knowledge, it has not been reported in the literature previously.

### Keywords

Ureter; Double Lumen; Radiology; Findings

## Introduction

Ureter duplication is the most common congenital anomaly of the urinary system. Ureteral duplication varies from a bifid pelvis to completely separate ureters. The reported incidence varies from 0.8% in an autopsy series, to 40% in a pyelography review, and displays a wide spectrum of imaging findings [1-2]. The unilateral form occurs about 6 times more commonly than the bilateral form, with the left and right sides being almost equally involved [3].

We demonstrated radiologic findings of distal ureter with partially double lumen. According to our knowledge, it has not been reported in the literature previously.

## Case Report

A 37 year old male with no previous history for stone disease presented to our hospital with right sided colicky pain for three hours. Ultrasonography revealed dilatation of the collecting system of the right kidney. The patient was admitted to the urology department since his pain did not respond to initial analgesic treatment. He was treated with parenteral narcotic analgesics and hydration. Non-contrast CT revealed a 4 mm stone in the right lower ureter. The patient was discharged with oral medication after his pain subsided for a trial of spontaneous passage. Two days later, he came back to the urology department with colicky pain. At this time, non-contrast CT showed that the stone was still in the right lower ureter. Thus, a decision was made for ureteroscopic removal. At right sided ureteroscopy the stone was located at the lower ureter and was removed with basket catheter. After the stone was removed it was seen that the ureteral lumen divided into two separate channels proximal to the location of the stone. Retrograde ureteropyelography was performed which showed that approximately 3 centimeters of lower ureter had double lumina which joined both proximally and distally. The remaining parts of the ureter and pyelocalyceal system were normal. No further interventions were performed. The patient was completely symptom-free after the operation and was discharged on post-operative day one. Intravenous pyelography was performed one month after surgery which showed similar findings with retrograde ureteropyelography (Figure 1A and 1B)

## Discussion

The unilateral ureter duplications are the most common anomaly of the urinary system. The unilateral form occurs about 6 times more commonly than the bilateral form, this anomaly are seen equally in the left and right sides [3].

It presents complete or incomplete ureteric duplication. Incomplete duplication is three times more common than complete duplication, which are 500 people [4].

The ureteric orifices are characteristically inverted, in relation to the renal unit they drain. The ureter of the lower renal unit drains to the normal ureteric insertion, while the ureter of the upper renal unit drains ectopically [5].

Our patient had unilateral ureter duplication. Interestingly, single ureter lumen was separated into pieces lumen in the distal ureter and then it was fused at end of the split, which located distal of the 3-4 cm. There was one ureter opening to bladder. Unfortunately, there is small amount of information about ure-

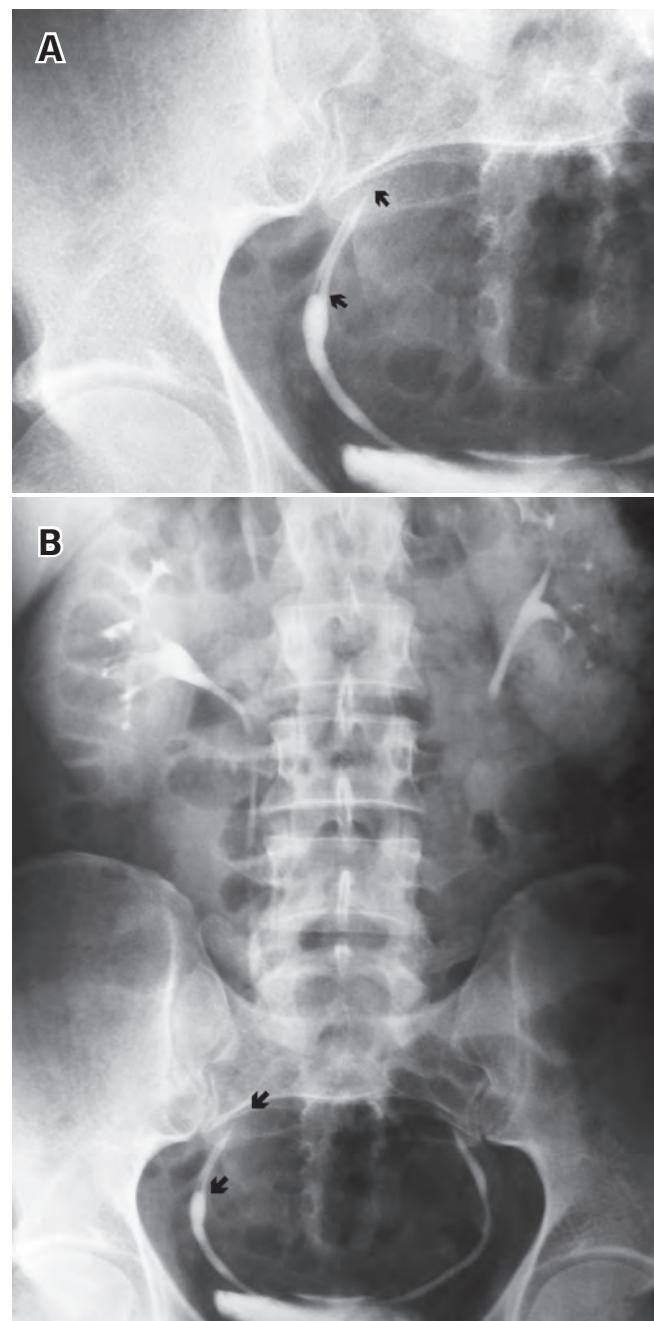


Figure 1. (A,B) intravenous urography shows right ureter with partially double lumen (arrows) and shows normal left ureter and bladder.

ter development and these knowledges base on speculative theories related the molecular mechanism of smooth muscle cell and urethelial differentiation. Morphologically, the ureter begins as a simple cuboidal epithelial tube surrounded by loose mesenchymal cells, which acquires a complete lumen at 28 days of gestation in humans. It was suggested that the developing ureter undergoes a transient luminal obstruction between 37 and 40 days and subsequently recanalizes [6]. It appears that this recanalization process begins in the midureter and extends in a bidirectional manner both cranially and caudally. In addition, another source of physiologic ureteral obstruction may exist as Chowilla's membrane, a two-cell-thick layer over the ureteric orifice that is seen between 37 and 39 days of gestation [7]. In our patient, the partial duplication of the ureteral lumen might have been caused by intraluminal attachments' formed during the recanalization process.

These patients may be accompanied by other ureteral anomalies.

lies such as ectopic ureter and have an increased risk of developing urinary tract infection, pain, hydronephrosis and stone formation. Incomplete duplication is most often associated with ureteroureteral reflux or ureteropelvic junction obstruction of the lower pole of the kidney. Complete duplication is most often associated with vesicoureteral reflux, ectopic ureterocele, or ectopic ureteral insertion, all of which are more common in girls than in boys. Vesicoureteral reflux affects the lower pole and can be outgrown, as in no duplicated systems [8]

Similarly, our patient had pain and stone formation. In conclusion, we want to report radiologic findings of distal ureter with partially double lumen. To the best of our knowledge, there are no published in the literature previously.

#### **Competing interests**

The authors declare that they have no competing interests.

#### **References**

1. Nation EF. Duplication of the kidney and ureter: a statistically study of 230 new cases. *J Urol* 1944; 51: 456-65 .
2. Nordmark B. Double formations of the pelvis of the kidneys and the ureters: embryology, occurrence and clinical significance. *Acta Radiol* 1948; 30(4):267-77.
3. Stuart BB. Anomalies of the upper urinary tract. In: Walsh PC, Retik AB, editors. *Campbell's Urology*. 8nd ed. Philadelphia:W.B.Saunders; 2002. p 1885-924.
4. Cronan JJ, Amis ES, Zeman RK, Dorfman GS. Obstruction of the upper pole moiety in renal duplication in adults: CT evaluation. *Radiology* 1986; 161(1):17-21.
5. Mackie GG, Stephens FD. Duplex kidneys: a correlation of renal dysplasia with position of the ureteral orifice. *J Urol* 1975;114(2):274-80.
6. Alcaraz A, Vinaixa, F, Tejedo-Mateu A , Forest MM, Gotzens V, Mestres CA, et al. Obstruction and recanalization of the ureter during embryonic development. *J Urol* 1991; 145(2): 410-6.
7. Baker LA, Gomez RA. Embryonic development of the ureter. *Semin Nephrol* 1998; 18(6): 569-84.
8. Fernbach SK, Zawin JK, Lebowitz RL. Complete duplication of the ureteropelvic junction obstruction of the lower pole of the kidney: imaging findings. *AJR* 1995; 164(3):701 -4.

#### **How to cite this article:**

Karadeli E, Ulusan ŞN, Yaycioğlu Ö. Radiologic Findings of Distal Ureter with Partially Double Lumen: First Case in the Literature. *J Clin Anal Med* 2013;4(suppl 4): 458-60.